

## **Impacto da rede de telemedicina na epidemiologia das malformações congênitas no estado da Paraíba-Brasil: uma comparação com incidências mundiais**

The impact of the telemedicine network on the epidemiology of congenital malformations in the state of Paraíba-Brazil: a comparison with worldwide incidences

Impacto de la red de telemedicina en la epidemiología de las malformaciones congénitas en el estado de Paraíba-Brasil: comparación con las incidencias mundiales

Recebido: 11/05/2022 | Revisado: 20/05/2022 | Aceito: 24/05/2022 | Publicado: 29/05/2022

**João Victor Bezerra Ramos**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8200-0236>  
Universidade Federal da Paraíba, Brasil  
E-mail: joavictor0072@hotmail.com

**Maria Helena Alves da Silva**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5297-9343>  
Universidade Federal da Paraíba, Brasil  
E-mail: helenamh99@gmail.com

**Thianne Maria Medeiros Araújo de Sousa**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8448-6452>  
Universidade Federal da Paraíba, Brasil  
E-mail: thithimeiros@hotmail.com

**Kleyber Dantas Torres de Araújo**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-5749-7877>  
Universidade Federal da Paraíba, Brasil  
E-mail: kleyber.araujo@gmail.com

**Juliana Sousa Soares de Araújo**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1571-1222>  
Universidade Federal da Paraíba, Brasil  
E-mail: jusousasoares.araujo@gmail.com

### **Resumo**

As anomalias congênitas são malformações observadas no pré-parto ou após o nascimento. Elas têm um impacto significativo nas taxas de mortalidade infantil e representam um problema de saúde pública. Para avaliar suas notificações, o estudo objetiva avaliar o impacto da implementação de uma rede de telemedicina inteiramente paraibana na epidemiologia local relacionada às malformações congênitas, comparando-a com incidências mundiais. Trata-se de um estudo descritivo retrospectivo, baseado nos registros de nascimentos e malformações, durante dois anos (2018 e 2019). A incidência do estudo foi contabilizada por 11.815 pacientes, dos quais 476 apresentaram malformações, enquanto as incidências continentais foram coletadas da literatura. A análise estatística dos dados foi realizada pelo teste T e pelo teste ANOVA. Houve predominância de malformações cardíacas (30%), musculoesqueléticas (15%) e geniturinárias (13,9%). A comparação estatística das malformações na Paraíba com os dados continentais refletiu similaridade com os continentes asiático ( $p = 0,03037$ ), africano ( $p = 0,03327$ ) e europeu ( $p = 0,04787$ ). A comparação das médias da população revelou que os dados da Paraíba, ligados aos dados mundiais, estão estatisticamente dentro de um padrão aceitável ( $p = 0,041638$ ). A alta incidência de malformações relatadas é possivelmente devido aos métodos locais de triagem adotados associados com a telemedicina adotada pela Rede Cuidar. A semelhança com os continentes em desenvolvimento denota uma realidade do impacto das anomalias nesses países. O estudo foi limitado à coleta de dados continentais, relacionados ao período de publicação dos estudos selecionados e às malformações agrupadas.

**Palavras-chave:** Malformações congênitas; Epidemiologia; Mortalidade infantil; Telemedicina.

### **Abstract**

Congenital anomalies are malformations observed in prepartum or after birth. They significantly impact infant mortality rates and represent a public health problem. The study aims to evaluate the impact of the implementation of a fully Paraíba telemedicine network on local epidemiology related to congenital malformations, comparing them to worldwide incidences. It is a retrospective descriptive study, based on the records of births and malformations, for two years (2018 and 2019). The incidence of the study was accounted for by 11.815 patients, of which 476 presented malformation, while the continental incidences were collected from the literature. The statistical analysis of the data was performed by the T-Test and the One-way ANOVA test. There was a predominance of cardiac (30%),

musculoskeletal (15%) and genito-urinary tract (13.9%) malformations. The statistical comparison of the malformations in Paraíba with the continental data reflected similarity with the Asian (p-value = 0,03037), African (p-value = 0,03327) and European (p-value = 0,04787) continents. The comparison of the population averages measured that the data of Paraíba, tied to the world data, is statistically within an acceptable pattern (p-value = 0,041638). The high incidence of malformations reported is possibly due to the local screening methods adopted associated with the telemedicine adopted by the Rede Cuidar. The similarity with developing continents denotes a reality of the impact of anomalies in these countries. The study was limited to the collection of continental data, related to the publication period of the selected studies and the grouped malformations.

**Keywords:** Congenital malformations; Epidemiology; Infant mortality; Telemedicine.

### Resumen

Las anomalías congénitas son malformaciones que se observan en el pre-parto o después del nacimiento. Tienen un impacto significativo en las tasas de mortalidad infantil y representan un problema de salud pública. Para evaluar sus notificaciones, el estudio tiene como objetivo evaluar el impacto de la implementación de una red de telemedicina enteramente de Paraíba en la epidemiología local relacionada con las malformaciones congénitas, comparándola con las incidencias mundiales. Se trata de un estudio descriptivo retrospectivo, basado en los registros de nacimientos y malformaciones, durante dos años (2018 y 2019). La incidencia del estudio se contabilizó en 11.815 pacientes, de los cuales 476 tenían malformaciones, mientras que las incidencias continentales se recogieron de la literatura. El análisis estadístico de los datos se realizó mediante la prueba T y la prueba ANOVA. Predominaban las malformaciones cardíacas (30%), musculoesqueléticas (15%) y genitourinarias (13,9%). La comparación estadística de las malformaciones en Paraíba con los datos continentales reflejó similitud con los continentes asiático ( $p = 0,03037$ ), africano ( $p = 0,03327$ ) y europeo ( $p = 0,04787$ ). La comparación de las medias poblacionales reveló que los datos de Paraíba, vinculados a los datos mundiales, están estadísticamente dentro de un estándar aceptable ( $p = 0,041638$ ). La elevada incidencia de malformaciones señalada se debe posiblemente a los métodos de cribado locales adoptados asociados a la telemedicina adoptada por la Rede Cuidar. La similitud con los continentes en desarrollo denota una realidad del impacto de las anomalías en estos países. El estudio se limitó a la recogida de datos continentales, relacionados con el periodo de publicación de los estudios seleccionados y las malformaciones agrupadas.

**Palabras clave:** Malformaciones congénitas; Epidemiología; Mortalidad infantil; Telemedicina.

## 1. Introdução

Malformações congênitas são alterações caracterizadas por uma anomalia funcional, estrutural, morfológica ou posicional de um único órgão ou parte dele (Impellizzeri et al., 2019). Pode ser de origem pré-natal, presente ao nascimento ou na infância, com etiologias multifatoriais, genéticas ou ambientais (Silva et al., 2018). Além disso, a maioria delas é cabível de prevenção (Groisman et al., 2018). Nesse sentido, estima-se que as anomalias congênitas estejam presentes de 2 a 3% dos nascidos vivos, mas este valor pode chegar a 5% nos casos em que estas alterações são diagnosticadas tardiamente (Silva et al., 2018).

De acordo com a Organização Mundial da Saúde (OMS), a cada ano aproximadamente 3,2 milhões de crianças no mundo inteiro nascem com malformações congênitas e aproximadamente 300.000 nascidos vivos com esse diagnóstico morrem nos primeiros 28 dias de vida (OMS, 2020). A taxa de mortalidade infantil é um importante indicador de saúde para um país porque está associada a determinantes sociais, biológicos, culturais e de acesso a serviços de saúde (Santos et al., 2016). O perfil da mortalidade infantil, no contexto atual, está passando por uma transição com uma prevalência de mortes atribuíveis a malformações congênitas e uma redução das taxas de mortalidade devido a causas infecciosas (França et al., 2017).

Pelo fato de que as malformações congênitas representam um grande problema de saúde pública, uma estratégia eficaz de prevenção primária deve ser prioridade para as políticas públicas e para o sistema de saúde (Baldacci et al., 2018), bem como incentivos para notificá-las a fim de ter um parâmetro epidemiológico mais confiável.

Dado o impacto na sociedade e devido à importância da notificação destas anormalidades, este trabalho visa avaliar o impacto da implementação de uma rede de telemedicina inteiramente paraibana na epidemiologia local relacionada às malformações congênitas, a partir dos nascimentos de um hospital de referência no estado da Paraíba, comparando-a com incidências mundiais.

## 2. Metodologia

O presente estudo caracteriza-se como descritivo retrospectivo, baseado nos registros de nascimentos, e no registro de malformações, referente ao período entre 1º de janeiro de 2018 e 31 de dezembro de 2019, consultado ao longo do ano de 2020. Foram incluídos todos os nascimentos vivos nascidos na maternidade de referência onde o estudo foi realizado.

A pesquisa descritiva estuda, constata e avalia as relações existentes entre duas ou mais variáveis, sem sua manipulação (Köche, 2009). Além disso, de acordo com esses autores, a análise e a relação entre as variáveis estudadas são feitas através de testes estatísticos. No presente estudo descritivo, as variáveis são os nascimentos com malformações congênitas, comparando-os com todos os nascimentos no local da pesquisa e com a incidência no mundo.

Todos os nascidos vivos com alguma malformação são identificados em um livro de registro, com o nome da mãe, data de nascimento, malformações e idade gestacional ao nascimento. As informações são relatadas ao Estudo Colaborativo Latino-Americano de Malformações Congênitas - ECLAMC, existente desde 1967 e amplamente adotado pelos países latino-americanos. Corresponde a um centro colaborador da OMS para o desenvolvimento da pesquisa clínica e epidemiológica das malformações congênitas, sendo considerado uma ferramenta importante para sua prevenção (Stefani et al., 2018).

As malformações foram divididas em categorias: cardíaca, defeitos do tubo neural, musculoesquelética, gastrointestinal, geniturinária, craniofacial e outras que não se enquadravam em nenhuma das categorias descritas anteriormente. Foram identificadas pelo menos as três malformações mais incidentes em cada categoria.

Foi construída uma tabela com as variáveis “continentes” e “tipo de malformação congênita”, para ilustrar a comparação de análise bivariada entre as incidências encontradas no presente estudo com as mundiais. Para a construção dessa tabela, houve um esforço para coletar as informações na literatura mundial apenas dos últimos 5 anos. Entretanto, devido à escassez de estudos referentes ao assunto, foram selecionados artigos de 2010 a 2020, retirados de bancos de dados digitais disponíveis. Além desta limitação do estudo, outra limitação observada foi que um dos dados obtidos de um determinado trabalho foi extraído de 1994, embora esteja localizado em um artigo de temporalidade mais atual. Assim, com exceção deste único dado, todos os outros compreendem o lapso de tempo entre 2010 e 2020.

A coleta de dados relacionados às malformações distribuídas pelos continentes também apresentou outras limitações. Nas malformações do tubo neural, é importante enfatizar que os dados apresentados na tabela no item "hidrocefalia" referem-se apenas a pacientes com hidrocefalia e não hidrocefalia concomitante a outras malformações do tubo neural, tais como mielomeningocele. Nas malformações geniturinárias, os intervalos referentes à malformação genital e à malformação urinária foram considerados separadamente nos artigos selecionados. Os dados coletados de fenda palatina correspondem aos dados obtidos a partir de anomalias orofaciais, já que ela é estudada no mundo inteiro no grupo das malformações orofaciais.

Para a análise estatística dos dados, foram utilizados o teste T e a ANOVA: fator único. Neste aspecto, o Teste T foi usado para comparar os dados locais com cada continente, de forma separada, identificando com quais continentes nossos dados seriam mais similares. O teste ANOVA: fator único, por sua vez, comparou os dados locais coletados com os dados mundiais, de forma conjunta, analisando se os números obtidos no estudo foram estatisticamente significativos quando relacionados com a epidemiologia global. Desta forma, foi possível comparar os resultados do estudo com os resultados de cada continente, de forma isolada e também de uma perspectiva geral, através dos respectivos testes.

## 3. Resultados

Os dados do presente estudo foram coletados em um hospital de referência no estado da Paraíba, nos primeiros dois anos após a implementação da rede de telemedicina inteiramente paraibana no estado, a Rede Cuidar, cujo objetivo principal é o diagnóstico precoce das malformações congênitas, visando ao impacto na redução da mortalidade infantil.

Entre 1º de janeiro de 2018 e 31 de dezembro de 2019, nasceram 11.815 pacientes, dos quais 476 apresentaram algum tipo de malformação registrada, o que corresponde a 4% dos nascidos vivos. Eram 263 homens, 212 mulheres e 01 não identificado. De acordo com a idade gestacional, foram registrados 07 pacientes com menos de 28 semanas; 28 pacientes entre 28 semanas e 31 semanas e 6 dias; 105 entre 32 semanas e 36 semanas e 6 dias; e 336 com mais de 37 semanas. A quantidade de malformações registradas foi de 759, uma vez que alguns pacientes apresentaram mais de uma malformação concomitantemente.

As malformações cardíacas foram de 228, o que corresponde a 30% de todas as malformações e 1,93% de todos os nascidos vivos. As mais registradas foram: persistência do canal arterial (PCA), com 77 casos, comunicação interventricular (CIV) com 32 casos e comunicação interatrial (CIA) com 21 casos, correspondendo em porcentagem relativa às malformações cardíacas: 33,8%, 14% e 9,2%, respectivamente. As malformações musculoesqueléticas foram 114, o que corresponde a 15% de todas as malformações e 0,96% de todos os nascidos vivos. As mais registradas foram: polidactilia com 47 casos, pé torto congênito unilateral ou bilateral com 33 casos, sindactilia com 11 casos e micrognatia com 4 casos, correspondendo em porcentagem relativa às malformações musculoesqueléticas: 41,2%, 28,9%, 9,6%, e 3,5%, respectivamente.

As malformações do trato geniturinário foram 106, o que corresponde a 13,9% de todas as malformações e 0,89% dos nascidos vivos. As mais registradas foram: hidrocele com 37 casos, criptorquidia com 30 casos, hipospadias com 16 casos e hidronefrose com 10 casos, correspondendo em percentual relativo às malformações geniturinárias: 34,9%, 28,3%, 15%, e 9,4% respectivamente. As malformações do tubo neural foram 92, o que corresponde a 12,1% de todas as malformações e 0,7% de todos os nascidos vivos. As mais registradas foram: hidrocefalia com 27 casos, microcefalia com 11 casos, meningocele com 10 casos e holoprosencefalia e ventriculomegalia, ambas com 7 casos, correspondendo em porcentagem em relação às malformações do tubo neural: 29,3%, 11,9%, 10,8%, 7,6%, e 7,6%, respectivamente.

As malformações craniofaciais foram 77, o que corresponde a 10,1% de todas as malformações e 0,65% de todos os nascidos vivos. As mais registradas foram: apêndice pré-auricular com 22 casos, fenda palatina com 12 casos, implantação baixa das orelhas com 11 casos e ausência ou má formação de pavilhão auricular e fenda lábio leporina com 8 casos cada, correspondendo respectivamente, em porcentagem relativa às malformações craniofaciais: 28,5%, 15,5%, 14,2% e 10,3% cada uma. As malformações gastrointestinais foram 34, o que corresponde a 4,4% de todas as malformações e 0,28% de todos os nascidos vivos. As mais registradas foram: onfalocele com 5 casos, gastrosquise com 4 casos, atresia esofágica, ânus imperfurado, hérnia diafragmática com 3 casos e artéria umbilical única com 2 casos, correspondendo em percentual relativo às malformações gastrointestinais: 14,7%, 11,7%, 8,8%, e 5,8% respectivamente.

As demais malformações com 32 casos, correspondem a 4,2% de todas as malformações e 0,27% de todos os nascidos vivos. Esses resultados estão esquematizados na tabela 1 e são comparados com os dados de cada continente do mundo por 1.000 nascidos vivos na tabela 2.

**Tabela 1** - Incidências das malformações congênicas no estado da Paraíba-Brasil (entre 2018 e 2019).

Malformações congênicas		Incidência absoluta	Incidência relativa para o grupo
Cardíacas	Geral	228	100%
	PCA	77	33,8%
	CIV	32	14%
	CIA	21	9,2%
Musculoesqueléticas	Geral	114	100%
	Polidactilia	47	41,2%
	Pé torto congênito	33	28,9%
	Sindactilia	11	9,6%
Genitourinárias	Geral	106	100%
	Hidrocele	37	34,9%
	Criptorquidia	30	28,3%
	Hipospádias	16	15%
Tubo neural	Geral	92	100%
	Hidrocefalia	27	29,3%
	Microcefalia	11	11,9%
	Meningocele	10	10,8%
Craniofaciais	Geral	77	100%
	Apêndice pré-auricular	22	28,5%
	Fenda palatina	12	15,5%
	Implantação baixa das orelhas	11	14,2%
Gastrointestinais	Geral	34	100%
	Onfalocele	5	14,7%
	Gastrosquise	4	11,7%
	Atresia esofágica, ânus imperfurado e hérnia diafragmática	3	8,8%

Fonte: Autores (2022).

**Tabela 2** - Incidência de malformação congênita por 1000 nascidos vivos: Comparação do mundo (estudos de 1994 a 2019) com o estado da Paraíba (anos de 2018 e 2019)

Malformação congênita	América	Europa	Ásia	África	Oceania	Paraíba	
<b>Cardíacas<sup>a</sup></b>	Geral	10,8	7,2 - 13,32	6,7 - 13,08	6,8	7,6	19,2975
	PCA	0,40 - 0,50	0,94	0,67 - 0,78	0,45	0,45	6,51714
<b>Tubo Neural<sup>b</sup></b>	Geral	0,778 - 2,289	0,863 - 0,91	0,676 - 3,196	0,76 - 3,8	1,210	7,78671
	Hidrocefalia	0,424 - 3,161	0,4 - 0,833	0,763 - 0,926	1,449	0,835	2,28523
<b>Gastrointestinais<sup>c</sup></b>	Geral	0,728	1,4 - 1,44	0,53	2,48	0,19 - 0,28	2,878
	Gastrosquise	0,454 - 0,490	0,197 - 0,212	0,254	0,21	0,24	0,339
<b>Musculoesqueléticas<sup>d</sup></b>	Geral	4,4	3,74 - 3,82	2,33	1,3	10,89 - 11,64	9,649
	Polidactilia	1,0 - 1,428	0,5	0,31	1,0	0,86	3,978
<b>Genitourinárias<sup>e</sup></b>	Geral	0,306 - 0,896	1,96 - 2,81	0,77	0,52 - 1,17	3,99 - 7,11	8,972
	Hipospádias	3,42	1,99	1,4 - 3,3	5,9	1,71 - 3,48	1,354
<b>Craniofaciais<sup>f</sup></b>	Geral	0,7	0,3 - 0,32	0,32	0,91	2,03 - 2,36	6,517
	Fenda palatina	1,53 - 1,59	1,52 - 1,58	1,54 - 1,6	0,54 - 0,6	1,30 - 1,36	1,016

**Abreviação:** PCA, persistência do canal arterial

<sup>a</sup>**Dados adaptados de:** Mat Bah M. N. et al., Mattos S. S. et al., Zhao Q. M. et al.

<sup>b</sup>**Dados adaptados de:** Blencowe H. et al., Khoshnood B. et al., Krzesinski E. I. et al., Dewan M. C. et al., Huang Y. H. et al., Wiig U. S. et al., Porras-Hurtado G. L. et al.

<sup>c</sup>**Dados adaptados de:** Kumar A. et al., Moorthie S. et al., Pasha Y. Z. et al., Abbey M. et al., Oben G. L. M., Anderson J. E., Bremer S. et al., Xu L. L. et al., Gom S. et al., Abeywardana S. et al.

<sup>d</sup>**Dados adaptados de:** Guimarães A. L. S. et al., Moorthie S. et al., Mirfazeli A. et al., Abbey M. et al., Craig E. et al., Ahmed H. et al., Petit F. et al., Jaruratanasirikul S. et al., Abulezz T. et al., Abeywardana S. et al.

<sup>e</sup>**Dados adaptados de:** Porras-Hurtado G. L. et al., Moorthie S. et al., Mirfazeli A. et al., Abbey M. et al., Craig E. et al., Springer A. et al.

<sup>f</sup>**Dados adaptados de:** Guimarães A. L. S. et al., Moorthie S. et al., Mirfazeli A. et al., Abbey M. et al., Craig E. et al., Panamonta V. et al.

Fonte: Autores (2022).

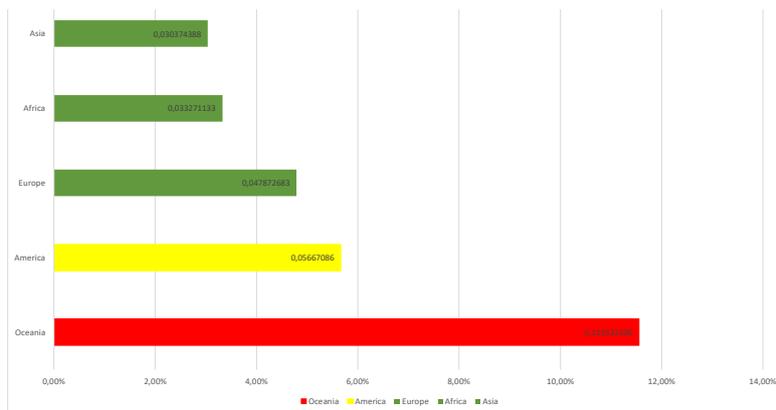
A partir da análise estatística dos dados das malformações no estado da Paraíba com distribuição normal dos dados continentais utilizando o Teste T e assumindo variâncias diferentes para a amostra, verificou-se que os resultados apresentados possuem similaridade de 97% com os continentes asiático e africano. De acordo com o resultado do p-valor, ainda apresenta uma semelhança de 95% com a Europa, sendo significativo para efeito de comparação. Na correlação com os dados da Oceania e da América, percebeu-se uma variação superior ao convencionado para a análise estatística dos dados de saúde, ou seja, p-valor superior a 0,05, conforme Tabela 3 e Gráfico 1.

**Tabela 3** - Teste T para amostra assumindo variações diferentes.

<i>Paraíba X Continentes</i>	<i>%</i>	<i>p-Valor</i>
<b>Oceania</b>	12%	0,115532
<b>América</b>	6%	0,056671
<b>Europa</b>	5%	0,047873
<b>África</b>	3%	0,033271
<b>Ásia</b>	3%	0,030374

Fonte: Autores (2022).

**Gráfico 1** - Comparação da distribuição dos dados da Paraíba X Continentes. Teste T para Amostras assumindo variâncias diferentes.



Fonte: Autores (2022).

Quando analisados com o teste ANOVA: fator único, as médias populacionais foram comparadas, com base na análise de variância da amostra. O resultado do p-valor foi de 0,0451638, representando que os dados da Paraíba, analisados em conjunto com os dados mundiais, estão estatisticamente dentro de um padrão considerado aceitável em 96%.

#### 4. Discussão

A carência dos métodos de triagem para as cardiopatias congênitas no estado da Paraíba mascarava a real epidemiologia dessas anomalias na região, uma vez que, considerando o número de nascimentos no estado, eram esperados entre 45 a 60 cardiopatas; entretanto, encontrou-se uma incidência inferior, evidenciando a necessidade de um programa de triagem neonatal (Araújo et al., 2014). Diante desse cenário e da escassez de profissionais especializados, no ano de 2011, foi realizada uma parceria com o governo do estado de Pernambuco, através do projeto Círculo do Coração.

Essa parceria integrava 21 centros no estado da Paraíba e 1 centro especializado em Pernambuco e foi responsável pela triagem de cerca de 95% dos cardiopatas do estado (Mattos et al., 2015). Ao ser feita uma avaliação desse projeto, entre os anos de 2012 e 2014, verificou-se o aumento na incidência das cardiopatias congênitas em virtude da potencialização dos métodos diagnósticos (Mattos et al., 2015). A parceria durou 7 anos, até a Paraíba ter recursos logísticos, financeiros e profissionais suficientes para criar uma rede inteiramente do estado, a Rede Cuidar, originada em 2018, com três frentes de atuação: neonatologia, cardiologia pediátrica e obstetrícia.

Por ser uma estratégia criada recentemente com recursos próprios, ainda não haviam sido desenvolvidos estudos que mostrassem a real efetividade do impacto da Rede Cuidar na triagem e no diagnóstico precoce das malformações congênitas. Este estudo é, portanto, um instrumento avaliativo dessa repercussão a partir dos dados extraídos do hospital de referência nos dois primeiros anos de atuação da rede paraibana.

Desta forma, com a implementação estratégica da rede de telemedicina, foi possível realizar o diagnóstico de um grande número de cardiopatias congênitas, o que mudou o cenário epidemiológico de subdiagnóstico observado previamente nesta região. Em nosso estudo, a incidência identificada de malformações cardíacas foi de 19,3 por 1.000 nascidos vivos, dado superior ao observado na literatura, de aproximadamente 6 por 1.000 nascidos vivos (Hansen et al., 2017).

Apesar do presente estudo ter sido realizado em um país subdesenvolvido, em que há uma dificuldade na triagem e diagnóstico dos pacientes cardiopatas, os dados foram maiores, inclusive, do que os de países desenvolvidos, como os Estados Unidos com 13 por 1.000 nascidos vivos e a Noruega com 13,7 por 1.000 nascidos vivos (Robinson et al., 2019), bem como de países superpopulosos, como a China que apresenta 8,98 por 1.000 nascidos vivos (Zhao et al., 2019). A incidência elevada em nosso estudo se deve à implementação de uma rede de telemedicina no estado, que, dentre várias estratégias utilizadas, destaca-se pelo uso da ecocardiografia de modo ampliado como triagem para todos os nascidos vivos. A utilização dessa técnica é responsável pelo aumento da incidência de lesões leves, como a persistência do canal arterial (PCA), a comunicação interventricular (CIV) e a comunicação interatrial (CIA) (Liu et al., 2019), as malformações mais registradas em nosso estudo.

Pode-se também pensar na interferência do fator socioeconômico como preditor das malformações cardíacas, uma vez que existe uma influência dos determinantes sociais da saúde na área da cardiologia pediátrica tanto a curto como a longo prazo, embora ainda seja mal compreendida (Peyvandí et al., 2020).

Com uma incidência de aproximadamente 9 por 1.000 nascidos vivos em nosso estudo, as malformações do trato genitourinário destacam-se devido a um aumento anual identificado na literatura, fato que pode estar relacionado à expansão das tecnologias de imagem, como a ultrassonografia, aumentando a taxa de detecção (Jiang et al., 2020). Esse método diagnóstico também se faz importante na detecção dos defeitos do tubo neural (Krzyszinski et al., 2019), malformação congênita com incidência de aproximadamente 7,8 por 1.000 nascidos vivos em nosso estudo. O elevado número dessa anomalia deve-se não apenas aos métodos diagnósticos utilizados na rede, mas também podem estar relacionados com os casos de infecção pelo vírus Zika (ZIKV), tendo em vista que o local do presente estudo está no Nordeste brasileiro, epicentro da epidemia. Dos casos relatados nessa região, quase 20% estavam na Paraíba, dentre eles foi identificada a presença do ZIKV no líquido amniótico de dois fetos com microcefalia intraútero (Araújo, 2016), a segunda malformação mais prevalente do tubo neural em nosso estudo.

Associado às técnicas de triagem e diagnóstico através dos exames de imagem, o período pré-natal também é importante para a identificação de diversas anomalias, como as malformações gastrointestinais (Lamquami et al., 2015), bem como para a redução da incidência das malformações craniofaciais (Shin et al., 2020). Nesse sentido, a Rede Cuidar também se destaca na sua frente de cuidado relacionada à obstetrícia, com o serviço de atenção à mulher durante o período pré-natal. Assim, a triagem nesse período é importante para assegurar o planejamento dos procedimentos a serem adotados com um impacto no bem-estar materno e fetal (Lamquami et al., 2015), além de contribuir para a redução da morbimortalidade e dos custos hospitalares advindos dos tratamentos dessas anomalias (Calderon et al., 2019).

Em relação aos dados locais comparados com os valores mundiais referentes às anomalias congênitas, notou-se a proximidade com os dados da Ásia, Europa e África; o que corrobora a hipótese de as anomalias congênitas serem as principais causas de morbidade e mortalidade nos países desenvolvidos e em desenvolvimento (Vatankhah et al., 2017), embora esta condição culmine em maiores mortes para os últimos (Ajao & Adeoye, 2019). A fragilidade observada nos países subdesenvolvidos é o resultado de um sistema de informação deficiente e, portanto, é responsável pelo aumento dos custos de saúde nesses países (Ekwochi et al., 2018). Neste sentido, a adoção efetiva de medidas de triagem ligadas à educação da população pela mídia e profissionais de saúde em países subdesenvolvidos é uma alternativa eficaz para prevenção, diagnóstico e tratamento precoce de anomalias congênitas (Lawal et al., 2015). Assim, essa acentuada heterogeneidade entre as regiões globais pode ser atribuída principalmente à disponibilidade diferencial da tecnologia de diagnóstico médico (Liu et al., 2019).

Devido ao curto período de atuação desde que foi implementada, a Rede Cuidar é responsável pela detecção de uma incidência superior à observada na literatura; todavia, a longo prazo, espera-se a redução do número de anomalias que sejam cabíveis de prevenção, como alguns defeitos do tubo neural oriundos da carência de ácido fólico, tendo em vista as medidas de planejamento familiar e educação em saúde adotadas para as gestantes.

## 5. Conclusão

O presente estudo conclui que as malformações congênitas têm uma alta incidência na Paraíba e sua notificação, através da Rede Cuidar, é relevante para o planejamento de medidas assistenciais e de prevenção que contribuam para a redução das taxas de mortalidade infantil. Desse modo, a alta incidência das malformações é justificada pelos métodos locais de triagem adotados, devido às suas apresentações visíveis e morfológicas, bem como pelos exames de imagem regulares realizados no período gestacional. Nesse sentido, a implementação de uma rede de telemedicina, através das suas três frentes de atuação, está impactando sobremaneira o cenário epidemiológico local, contribuindo para um tratamento adequado e precoce e para o planejamento de medidas que visem a redução de sua incidência a longo prazo.

Ademais, a semelhança dos dados locais com os continentes asiático, europeu e africano representa um cenário no qual as malformações congênitas impactam principalmente as nações em desenvolvimento, devido ao custo das tecnologias de diagnóstico. Diante do impacto que a rede de telemedicina, utilizando tecnologia de baixo custo, está promovendo na detecção precoce das malformações congênitas, conclui-se que essa estratégia pode ser uma alternativa viável para os países desenvolvidos e um instrumento a ser adotado pelas nações subdesenvolvidas, a fim de garantir uma melhoria nos indicadores epidemiológicos de um país, como a mortalidade infantil.

É importante ressaltar que o estudo apresentou limitações na coleta de incidências continentais, pelo período de publicação e agrupamento de malformações nos estudos observados. Portanto, são necessários estudos que busquem incidências cada vez mais atuais e individualizadas para cada malformação.

Por fim, estudos futuros poderiam ser realizados em outros estados e territórios afim de constatar se a incidência das malformações está de acordo com o que seria esperado na literatura para aquela população. Já em se tratando da Paraíba, com a

existência da Rede Cuidar e que a incidência está além do esperado na literatura, devido a estratégias de triagem e diagnóstico precoce, bem como à busca ativa existente no estado, estudos futuros se fazem necessários para avaliação dessa incidência com relação à pandemia da COVID-19 e à vacinação para essa doença, avaliando se houve aumento, diminuição ou se a incidência se manteve constante, independente desses fatores.

## Agradecimentos

Ao Estudo Colaborativo Latino-Americano de Malformações Congênitas - ECLAMC por sua colaboração neste estudo e em outras pesquisas epidemiológicas sobre anomalias congênitas.

## Referências

- Abbey, M., Oloyede, O. A., Bassey, G., Kejeh, B. M., Otaigbe, B. E., Opara, P. I., & Akani, C. I. (2017). Prevalence and pattern of birth defects in a tertiary health facility in the Niger Delta area of Nigeria. *International journal of women's health*, 9, 115.
- Abeywardana, S., & Sullivan, E. A. (2008). *Congenital anomalies in Australia 2002-2003*. AIHW National Perinatal Statistics Unit.
- Abulezz, T., Talaat, M., Elsani, A., & Allam, K. (2016). Congenital hand anomalies in Upper Egypt. *Indian Journal of Plastic Surgery*, 49(02), 206-213.
- Ahmed, H., Akbari, H., Emami, A., & Akbari, M. R. (2017). Genetic overview of syndactyly and polydactyly. *Plastic and reconstructive surgery Global open*, 5(11).
- Ajao, A. E., & Adeoye, I. A. (2019). Prevalence, risk factors and outcome of congenital anomalies among neonatal admissions in OGBOMOSO, Nigeria. *BMC pediatrics*, 19(1), 1-10.
- Anderson, J. E., Cheng, Y., Stephenson, J. T., Saadai, P., Stark, R. A., & Hirose, S. (2018). Incidence of gastroschisis in California. *JAMA surgery*, 153(11), 1053-1055.
- Araújo, J. S. S. (2016). O impacto de uma rede de telemedicina no enfrentamento da microcefalia no estado da Paraíba.
- Araújo, J. S. S., Régis, C. T., Gomes, R. G. S., Silva, C. S., Abath, C. M. B., Mourato, F. A., & Mattos, S. S. (2014). Cardiopatia congênita no nordeste brasileiro: 10 anos consecutivos registrados no estado da Paraíba, Brasil. *Rev Bras Cardiol*, 27(1), 509-15.
- Baldacci, S., Gorini, F., Santoro, M., Pierini, A., Minichilli, F., & Bianchi, F. (2018). Environmental and individual exposure and the risk of congenital anomalies: a review of recent epidemiological evidence. *Epidemiol Prev*, 42(3-4 Suppl 1), 1-34.
- Blencowe, H., Kancharla, V., Moorthie, S., Darlison, M. W., & Modell, B. (2018). Estimates of global and regional prevalence of neural tube defects for 2015: a systematic analysis. *Annals of the new York Academy of Sciences*, 1414(1), 31-46.
- Bremer, S., Kiess, W., Thome, U., Knuepfer, M., Buehligen, U., Vogel, M., ... & Rissmann, A. (2016). Prevalence of Gastroschisis, Omphalocele, Spina Bifida and Orofacial Clefts of Neonates from January 2000 to December 2010 in Leipzig, Saxony, Saxony-Anhalt and Germany. *Gesundheitswesen (Bundesverband der Ärzte des Öffentlichen Gesundheitsdienstes (Germany))*, 80(2), 122-128.
- Calderon, M. G., Santos, E. F. D. S., Abreu, L. C. D., & Raimundo, R. D. (2019). Increasing prevalence, time trend and seasonality of gastroschisis in São Paulo state, Brazil, 2005–2016. *Scientific Reports*, 9(1), 1-10.
- Craig, E., Reddington, A., Adams, J., Dell, R., Jack, S., Oben, G., & Simpson, J. (2013). The Health of Children and Young People with Chronic Conditions and Disabilities in the South Island (2013).
- Dewan, M. C., Rattani, A., Mekary, R., Glancz, L. J., Yunusa, I., Baticulon, R. E., & Warf, B. C. (2018). Global hydrocephalus epidemiology and incidence: systematic review and meta-analysis. *Journal of neurosurgery*, 130(4), 1065-1079.
- Ekwochi, U., Asinobi, I. N., Osuorah, D. C. I., Ndu, I. K., Ifediora, C., Amadi, O. F., & Sunday Mba, G. (2018). Pattern of congenital anomalies in newborn: a 4-year surveillance of newborns delivered in a tertiary healthcare facility in the south-east Nigeria. *Journal of tropical pediatrics*, 64(4), 304-311.
- França, E. B., Lansky, S., Rego, M. A. S., Malta, D. C., França, J. S., Teixeira, R., & Vasconcelos, A. M. N. (2017). Leading causes of child mortality in Brazil, in 1990 and 2015: estimates from the Global Burden of Disease study. *Revista brasileira de Epidemiologia*, 20, 46-60.
- Gom, S., Grieve, A., & Velaphi, S. (2019). Characteristics and outcomes of neonates with gastroschisis managed in a public tertiary hospital in a developing country. *South African Journal of Child Health*, 13(4), 168-173.
- Groisman, B., Bidondo, M. P., Duarte, S., Tardivo, A., Barbero, P., & Liascovich, R. (2018). Descriptive epidemiology of major structural congenital anomalies in Argentina. *Medicina*, 78(4), 252-257.
- Guimarães, A. L. S., Barbosa, C. C., Oliveira, C. M. D., Maia, L. T. D. S., & Bonfim, C. V. D. (2020). Relationship of databases of live births and infant deaths for analysis of congenital malformations. *Revista Brasileira de Saúde Materno Infantil*, 19, 917-924.
- Hansen, T., Henriksen, T. B., Bach, C. C., & Matthiesen, N. B. (2017). Congenital heart defects and measures of prenatal brain growth: a systematic review. *Pediatric Neurology*, 72, 7-18.

- Huang, Y. H., Wu, Q. J., Chen, Y. L., Jiang, C. Z., Gong, T. T., Li, J., ... & Zhou, C. (2018). Trends in the prevalence of congenital hydrocephalus in 14 cities in Liaoning province, China from 2006 to 2015 in a population-based birth defect registry from the Liaoning Women and Children's Health Hospital. *Oncotarget*, 9(18), 14472.
- Impellizzeri, A., Giannantoni, I., Polimeni, A., Barbato, E., & Galluccio, G. (2019). Epidemiological characteristic of Orofacial clefts and its associated congenital anomalies: retrospective study. *BMC Oral Health*, 19(1), 1-14.
- Jaruratanasirikul, S., Tangtrakulwanich, B., Rachatawiriyaikul, P., Sriplung, H., Limpitikul, W., Dissaneevate, P., & Tantichantakarun, P. (2016). Prevalence of congenital limb defects: Data from birth defects registries in three provinces in Southern Thailand. *Congenital anomalies*, 56(5), 203-208.
- Jiang, D., Wang, Q., Shi, Z., & Sun, J. (2020). Congenital anomalies of the kidney and urinary tract in children with congenital heart defects. *Kidney and Blood Pressure Research*, 45(2), 307-313.
- Khoshnood, B., Loane, M., De Walle, H., Arriola, L., Addor, M. C., Barisic, I., ... & Dolk, H. (2015). Long term trends in prevalence of neural tube defects in Europe: population based study. *Bmj*, 351.
- Köche, J. C. (2009). Fundamentos da metodologia científica: teoria da ciência e iniciação à pesquisa. In: *Fundamentos da metodologia científica: teoria da ciência e iniciação à pesquisa*.
- Krzesinski, E. I., Geerts, L., & Urban, M. F. (2019). Neural tube defect diagnosis and outcomes at a tertiary South African hospital with intensive case ascertainment. *South African Medical Journal*, 109(9), 698-703.
- Kumar, A., & Singh, K. (2014). Major congenital malformations of the gastrointestinal tract among the newborns in one of the English Caribbean Countries, 1993-2012. *Journal of Clinical Neonatology*, 3(4), 205.
- Lamquami, S., Mamouni, N., Errarhay, S., Bouchikhi, C., & Banani, A. (2015). Antenatal diagnosis of isolated omphalocele. *Pan African Medical Journal*, 21(1).
- Lawal, T. A., Yusuf, B., & Fatiregun, A. A. (2015). Knowledge of birth defects among nursing mothers in a developing country. *African Health Sciences*, 15(1), 180-187.
- Liu, Y., Chen, S., Zühlke, L., Black, G. C., Choy, M. K., Li, N., & Keavney, B. D. (2019). Global birth prevalence of congenital heart defects 1970–2017: updated systematic review and meta-analysis of 260 studies. *International journal of epidemiology*, 48(2), 455-463.
- Mat Bah, M. N., Sopian, M. H., Jamil, M. T., Abdullah, N., Alias, E. Y., & Zahari, N. (2018). The birth prevalence, severity, and temporal trends of congenital heart disease in the middle-income country: a population-based study. *Congenital heart disease*, 13(6), 1012-1027.
- Mattos, S. D. S., Hazin, S. M. V., Regis, C. T., Araújo, J. S. S. D., Albuquerque, F. C. D. L., Moser, L. R. D. N., & Lima Filho, J. L. D. (2015). A telemedicine network for remote paediatric cardiology services in north-east Brazil. *Bulletin of the World Health Organization*, 93, 881-887.
- Mirfazeli, A., Kaviany, N., Hosseinpour, K., Aryaie, M., & Gotalipour, M. J. (2018). Birth Defects in Northern Iran (2008–2013). *Iranian Journal of Public Health*, 47(3), 413.
- Moorthie, S., Blencowe, H., Darlison, M. W., Lawn, J., Morris, J. K., Modell, B., ... & Yunnis, K. A. (2018). Estimating the birth prevalence and pregnancy outcomes of congenital malformations worldwide. *Journal of community genetics*, 9(4), 387-396.
- Oben, G. L. M. (2015). *Indicators for congenital anomalies in New Zealand* (Doctoral dissertation, University of Otago). <https://ourarchive.otago.ac.nz/handle/10523/5521>
- Organização Mundial de Saúde. Congenital anomalies. <https://www.who.int/news-room/fact-sheets/detail/congenital-anomalies>
- Panamonta, V., Pradubwong, S., Panamonta, M., & Chowchuen, B. (2015). Global birth prevalence of orofacial clefts: a systematic review. *J Med Assoc Thai*, 98(Suppl 7), S11-21.
- Pasha, Y. Z., Vahedi, A., Zamani, M., Alizadeh-Navaei, R., & Pasha, E. Z. (2017). Prevalence of birth defects in Iran: A systematic review and meta-analysis. *Archives of Iranian Medicine (AIM)*, 20(6).
- Petit, F., Jourdain, A. S., Holder-Espinasse, M., Keren, B., Andrieux, J., Duterque-Coquillaud, M., & Escande, F. (2016). The disruption of a novel limb cis-regulatory element of SHH is associated with autosomal dominant preaxial polydactyly-hypertrichosis. *European Journal of Human Genetics*, 24(1), 37-43.
- Peyvandi, S., Baer, R. J., Chambers, C. D., Norton, M. E., Rajagopal, S., Ryckman, K. K., & Steurer, M. A. (2020). Environmental and socioeconomic factors influence the live-born incidence of congenital heart disease: a population-based study in California. *Journal of the American Heart Association*, 9(8).
- Porras, G. L., León, O. M., Molano, J., Quinceno, S. L., Pachajoa, H., & Montoya, J. J. (2016). Prevalencia de defectos congénitos en Risaralda, 2010-2013. *Biomédica*, 36(4), 556-563.
- Robinson, R., Stavsky, M., Sade, M. Y., Krymko, H., Slanovic, L., Novack, V., & Levitas, A. (2019). Risk factors for congenital heart defects in two populations residing in the same geographic area: a long-term population-based study, Southern Israel. *Cardiology in the Young*, 29(8), 1040-1044.
- Santos, E. P. D., Ferrari, R. A. P., Bertolozzi, M. R., Cardelli, A. A. M., Godoy, C. B. D., & Genovesi, F. F. (2016). Mortality among children under the age of one: analysis of cases after discharge from maternity. *Revista da Escola de Enfermagem da USP*, 50, 0390-0398.
- Shin, H., Ahn, E., & Choi, E. J. (2020). Access to antenatal healthcare and the prevalence of oral clefts: a spatial analysis. *European Journal of Oral Sciences*, 128(2), 145-152.
- Silva, J. H. D., Terças, A. C. P., Pinheiro, L. C. B., França, G. V. A. D., Atanaka, M., & Schüler-Faccini, L. (2018). Perfil das anomalias congênitas em

nascidos vivos de Tangará da Serra, Mato Grosso, 2006-2016. *Epidemiologia e Serviços de Saúde*, 27.

Springer, A., Van Den Heijkant, M., & Baumann, S. (2016). Worldwide prevalence of hypospadias. *Journal of pediatric urology*, 12(3), 152-e1.

Stefani, R. R., Böckmann, B. S., Soska Baldissera, G. S., Scherer, M. H., Lüdtke, M., & Signor, N. D. (2018). Malformações congênitas: principais etiologias conhecidas, impacto populacional e necessidade de monitoramento. *Acta méd. Porto Alegre*, 155-84.

Vatankhah, S., Jalilvand, M., Sarkhosh, S., Azarmi, M., & Mohseni, M. (2017). Prevalence of congenital anomalies in Iran: A review article. *Iranian journal of public health*, 46(6), 733.

Wiig, U. S., Zahl, S. M., Egge, A., Helseth, E., & Wester, K. (2017). Epidemiology of benign external hydrocephalus in Norway—a population-based study. *Pediatric Neurology*, 73, 36-41.

Xu, L. L., Yuan, X. Q., Zhu, J., Li, X. H., Wang, Y. P., Zhou, G. X., ... & Yang, Y. (2011). Incidence and its trends on gastroschisis in some parts of China, 1996-2007. *Zhonghua liu Xing Bing xue za zhi= Zhonghua Liuxingbingxue Zazhi*, 32(3), 268-270.

Zhao, Q. M., Liu, F., Wu, L., Ma, X. J., Niu, C., & Huang, G. Y. (2019). Prevalence of congenital heart disease at live birth in China. *The Journal of pediatrics*, 204, 53-58.

Zhao, Z., Zhan, Y., Chen, W., Ma, X., Sheng, W., & Huang, G. (2019). Functional analysis of rare variants of Gata4 identified in Chinese patients with congenital heart defect. *genesis*, 57(11-12).