

## **ESTUDO EPIDEMIOLÓGICO DE PÉ TORTO EQUINOVARO CONGÊNITO (Epidemiological Study of Congenital Clubfoot)**

Dinorah Nunes

### **ABSTRACT**

The 844 cases in this study were derived from a series of 671,494 consecutive livebirths examined in 59 hospitals in South America. Genetic and environmental risk factors were investigated in the sample of malformed newborns with talipes equinovarus (TEV) and in control babies. An excess of boys was found among all babies with TEV. The data suggested difference between the TEV cases and control cases in the frequencies of birth presentation and multiple birth, consistent with the theory that intrauterine compression is an important etiological factor in talipes equinovarus. Furthermore, the data showed no relationship between the risk of disease and the proportion of primiparae or time between gestations. No significant difference in inbreeding coefficient was detected between the propositi and the controls. The proportion of non-Latin European ancestry was higher in the TEV cases than in the controls, but the sex proportion was the only evidence of heterogeneity between the TEV group of non-Latin European ancestry and the other ethnic groups.

### **INTRODUÇÃO**

A concepção de que pé torto equinovaro congênito (TEV) pode ser originado por pressão intrauterina anormal vem desde 377 a.C. segundo Hippocrates (Albeman, 1965) e foi novamente proposta por Dunn (1976). Wynne-Davies (1964) propôs a teoria de que fatores genéticos em pé equinovaro estariam relacionados à formação defeituosa do tecido conjuntivo, de modo que os pés seriam anormalmente móveis e mais susceptíveis a forças intrauterinas.

O predomínio do sexo masculino entre os casos de TEV é bem conhecido (Alberman, 1965; Wynne-Davies *et al.*, 1982), bem como a diferença racial (Chung *et al.*, 1969).

O objetivo deste trabalho é analisar os possíveis fatores de risco na etiologia de TEV. Para isso, foram utilizadas as seguintes variáveis: sexo, apresentação fetal, ordem de gravidez, espaçamento entre as gestações, endocruzamento e origem étnica dos antepassados.

## MATERIAL E MÉTODOS

A amostra utilizada no presente trabalho é constituída por 844 recém-nascidos vivos com TEV e igual número de recém-nascidos controles não-malformados pareados por sexo, momento e local de nascimento com os casos de TEV. O material pertence ao Estudo Colaborativo Latino-Americano de Malformações Congênitas, ECLAMC (Castilla *et al.*, 1974) e foi obtido a partir de 671.494 nascimentos vivos, no período de 1967 a 1978, em 59 maternidades de sete países da América do Sul: Argentina, Brasil, Chile, Equador, Peru, Uruguai e Venezuela.

O ECLAMC considerou malformados com TEV, os recém-nascidos com malposições do pé em equinismo e varismo que não se corrigem em resposta ao reflexo plantar provocado, o que se faz tomando o joelho com uma das mãos e provocando o estímulo plantar para se obter o sinal de Babinsky.

Foram considerados apenas os casos de TEV isolados, isto é, não associados a outras malformações. Para a variável sexo não se pôde usar a comparação de casos de TEV com o grupo controle normal, já que este é pareado por sexo com os malformados. A proporção de sexo utilizada foi: sexo masculino: 51,0% e sexo feminino: 49,0% que foi a encontrada na amostra total (342.772 do sexo masculino e 328.722 do sexo feminino) de nascimentos vivos do ECLAMC. A variável espaçamento foi considerada como o espaço médio em anos inteiros (por aproximação) entre gravidezes com êxito e do mesmo pai do propósito. Para origem étnica dos antepassados dos recém-nascidos, foram identificados oito grupos: europeu latino (espanhóis, portugueses, italianos, franceses, romenos, etc.), europeu não-latino (alemães, eslavos, saxões e de qualquer outro país europeu não-latino), judeu, nativo (com máxima probabilidade corresponde à mistura de indígena com europeu latino), turco (árabes e sírio-libaneses), negro, oriental e outro (não incluídos em nenhum dos sete ítems anteriores).

Para a análise dos resultados foram utilizados os testes do  $\chi^2$  com correção de Yates, exato de Fisher e o de Kolmogorov-Smirnov. Ao nível de 5% ou menor, as diferenças entre as proporções foram aceitas como significantes.

## RESULTADOS

Os 844 recém-nascidos com TEV deste estudo foram localizados a partir de

671.494 nascimentos vivos, o que nos dá uma incidência de 12,5 por 10.000 nascimentos vivos.

Na Tabela I, temos a distribuição por sexo, apresentação fetal, gemelaridade e coeficiente de endocruzamento nos malformados e nos controles. Há predomínio do sexo masculino entre os afetados por TEV (60,2%). Foi encontrada uma proporção significativamente maior de apresentação fetal não-cefálica e de gêmeos entre as crianças com TEV do que nos controles. Diferença não significativa foi observada entre casos de TEV e controles com relação ao endocruzamento. As proporções de ordem de nascimento e espaçamento entre as gestações dos recém-nascidos com TEV e controles não diferiram significativamente (Tabela II).

Foi observada uma frequência significativamente maior de componente europeu não-latino entre os antepassados de crianças com TEV que entre os controles (Tabela III), enquanto nos demais grupos étnicos as proporções foram similares. Quando os casos de TEV foram separados por grupo étnico europeu não-latino versus outros e comparados quanto ao sexo, apresentação fetal e gemelaridade, observamos heterogeneidade étnica apenas em relação à proporção sexual (Tabela IV).

Tabela I - Distribuição por sexo, apresentação fetal, gemelaridade e coeficiente de endocruzamento em recém-nascidos vivos com TEV e nos seus controles.

Variável	TEV		Controle		$\chi^2$	P
	Nº	%	Nº	%		
Sexo masculino*	508	60,2	508	60,2	28,15	<0,001
Total	844	100,0	844	100,0		
Apresentação fetal não-cefálica	51	6,1	25	3,0	8,36	<0,01
Total	836	100,0	828	100,0		
Partos múltiplos	19	2,3	2	0,2	12,26	<0,001
Total	844	100,0	840	100,0		
	Nº	F	Nº	F		
Coeficiente de endocruzamento	823	0,00094	829	0,00043		

\*Comparado com a amostra total de nascimentos vivos do ECLAMC (sexo masculino: 51,0%).

Tabela II - Distribuição de frequências de ordem de nascimento e espaçamento entre as gestações de recém-nascidos vivos com TEV e nos seus controles.

Ordem de nascimento					Espaçamento em anos				
TEV		Controle		TEV		Controle			
Nº	%	Nº	%	Nº	%	Nº	%		
1	292	35,0	293	35,0	1	306	41,3	311	41,7
2	187	22,3	193	23,0	2	271	36,7	283	30,0
3	127	15,2	124	14,7	3	96	13,0	101	13,5
4	79	9,4	95	10,1	4	30	4,0	27	3,6
5	52	6,2	49	5,8	5	20	2,7	9	1,2
6	35	4,2	40	4,7	6	6	0,8	8	1,1
7	21	2,5	11	1,3	7	3	0,4	1	0,1
8	17	2,0	16	2,0	8	3	0,4	3	0,4
9	11	1,3	5	0,6	9 ou +	5	0,7	2	0,3
10	4	0,5	3	0,3	—	—	—	—	—
11	7	0,8	6	0,7	—	—	—	—	—
12	2	0,2	4	0,5	—	—	—	—	—
13	1	0,1	4	0,5	—	—	—	—	—
14	1	0,1	2	0,2	—	—	—	—	—
15 ou +	1	0,1	4	0,5	—	—	—	—	—
Total	837	100,0	839	100,0	Total	740	100,0	745	100,0
*D		0,012 (ns)			0,023 (ns)				

\*Teste de Kolmogorov-Smirnov:

P = 0,05; Valor crítico:

D = 0,066 (ordem de nascimento)

D = 0,070 (espaçamento em anos)

(ns) não significante.

Tabela III - Proporção de antepassados europeus não-latinos e de outros grupos entre recém-nascidos vivos com TEV e nos seus controles.

Grupo étnico	TEV		Controle		$\chi^2$	P
	Nº	%	Nº	%		
Europeu não-latino	61	8,2	38	5,0		
Outros grupos	682	91,8	709	95,0	5,35	<0,05
Total	743	100,0	747	100,0		

Tabela IV - Distribuição dos casos de TEV por etnia, sexo, apresentação fetal e gemelaridade.

Variável	Europeu não-latino		Outros		$\chi^2$	P
	Nº	%	Nº	%		
Sexo masculino*	32	52,5	415	60,8	0,05	ns**
Total	61	100,0	682	100,0	26,48	<0,001***
Apresentação fetal não-cefálica	2	3,3	42	6,2	—	0,29 (ns) ****
Total	60	100,0	679	100,0		
Partos múltiplos	1	1,6	13	1,9	—	0,67 (ns) ****
Total	61	100,0	682	100,0		

\* Comparado com o total de nascimentos vivos (sexo masculino: 51,0%); \*\* europeu não-latino; \*\*\* outros grupos étnicos; \*\*\*\* teste exato de Fisher.

## DISCUSSÃO

A comparação dos valores de incidência deste trabalho com o de outros autores fica prejudicada pelo fato de TEV apresentar diferenças raciais de incidência (Chung and Myrianthopoulos, 1968).

O predomínio de indivíduos de sexo masculino entre os casos de TEV já tinha sido observado em outros trabalhos (Palmer, 1964; Alberman, 1965; Wynne-Davies *et al.*, 1982).

Wynne-Davies (1964) observou um excesso de malformações associadas em

crianças com TEV e parentes, que seriam originadas de um defeito hereditário do tecido conjuntivo. Encontrou um grande número de lassidão generalizada das articulações e propôs que isso aumentaria a susceptibilidade do feto às forças intrauterinas. Chung *et al.* (1969), partindo da comparação entre casos com TEV e a população normal do Havaí, não encontraram diferença significativa com relação a condições que têm um papel relevante no aumento da pressão intrauterina, como gemelaridade, peso ao nascer e tempo de gestação. Alberman (1965) e Wynne-Davies *et al.* (1982) não observaram diferenças significativas quanto à apresentação podálica, primiparidade e gemelaridade entre TEV e controle. Os dados deste estudo mostram maior frequência de gêmeos e de apresentação não-cefálica (75% podálica) em casos com TEV do que nos controles, o que favorece a teoria de que a pressão intrauterina tem papel relevante na etiologia de TEV. Devido à baixa frequência de gêmeos entre os controles (0,2%), a proporção de partos gemelares em TEV foi também comparada com a da Argentina (0,6%;  $P < 0,001$ ) que contribuiu com o maior número de dados, com a do total dos controles normais do ECLAMC (0,8%;  $P < 0,001$ ) e com a média ponderada das frequências dos países participantes (0,66%;  $P < 0,001$ ). As comparações acima confirmam a maior frequência de partos gemelares em TEV e fortalecem a idéia de que a gemelaridade é um importante fator de risco em TEV. Contudo, não foi encontrada diferença nas proporções de primiparidade e espaçamento entre as gestações de mães de crianças com TEV e de controles.

A análise não dá indicação de associação de endocruzamento com risco de TEV, dado concordante com os obtidos por Wynne-Davies (1964) e Chung *et al.* (1969).

Diferença racial na incidência tem sido descrita. Assim, Chung and Myrianthopoulos (1968) encontraram maior incidência de TEV em caucasóides do que em negros e Chung *et al.* (1969) em indivíduos de origem havaiana quando comparados com caucasóides e orientais. Neste trabalho, apenas os antepassados europeus não-latinos foram mais frequentes entre crianças com TEV do que nos controles. Contudo, só se conseguiu detectar heterogeneidade entre o grupo com tais antepassados e os demais grupos étnicos quanto à proporção sexual: o grupo europeu não-latino foi o único que não divergiu da proporção sexual da população total de recém-nascidos.

## AGRADECIMENTOS

Ao ECLAMC por permitir a utilização dos seus dados.

Ao Dr. Francisco M. Salzano pela leitura crítica do manuscrito e sugestões.

A Profa. Maria da Graça F. Dutra pelo auxílio na realização do trabalho. Ao Prof. Marcos Palatnik pelas sugestões.

## RESUMO

Os 844 casos de recém-nascidos vivos malformados deste estudo foram obtidos a partir de 671.494 nascimentos vivos examinados em hospitais participantes do ECLAMC no período de 1967-1976 em sete países da América do Sul. Um excesso de sexo masculino foi encontrado entre os recém-nascidos com TEV. Os dados sugeriram diferença entre TEV e controle nas frequências de apresentação fetal e gemelaridade. Nenhuma associação foi encontrada entre o risco de TEV e ordem de nascimento, espaçamento entre as gestações ou endocruzamento. Foi observada maior proporção de antepassados europeus não-latinos entre crianças com TEV que nos controles, porém a proporção de sexo foi a única evidência de heterogeneidade entre os casos de TEV com tais antepassados e os outros grupos étnicos.

## BIBLIOGRAFIA

- Alberman, E.D. (1965). Causes of congenital club-foot. *Arch. Dis. Child.* 40: 548-554.
- Castilla, E.E., Paz, J.E., Mutchinick, O.M., Muñoz, E.N., and Gelman, Z. (1974). Estudio latino-americano sobre malformaciones congénitas. *Bol. Ofic. Sanit. Panam.* 76: 494-502.
- Chung, C.S. and Myriantopoulos, N.C. (1968). Racial and prenatal factors in major congenital malformations. *Am. J. Hum. Genet.* 20: 44-60.
- Chung, C.S., Nemecheck, R.W., Larsen, I.J. and Ching, G.H.S. (1969). Genetic and epidemiological studies of club-foot in Hawaii. *Hum. Hered.* 19: 321-342.
- Dunn, P.M. (1976). Congenital postural deformities. *Br. Med. Bull.* 32: 71-76.
- Palmer, R.M. (1964). The genetics of talipes equinovarus. *J. Bone Joint Surg.* 46A: 542-556.
- Wynne-Davies, R. (1964). Family studies and the causes of congenital clubfoot. *J. Bone Joint Surg.* 46B: 445-463.
- Wynne-Davies, R., Littlejohn, A. and Cormley, J. (1982). Aetiology and interrelationship of some common skeletal deformities. *J. Med. Genet.* 19: 321-328.

(Recebido em 3 de Janeiro de 1985)