



UNIVERSIDADE ESTADUAL DA PARAÍBA
PROGRAMA DE PÓS-GRADUAÇÃO EM SAÚDE PÚBLICA
CURSO DE MESTRADO EM SAÚDE PÚBLICA

**ESTUDO SOBRE ATITUDE POSITIVA E COMPORTAMENTO REPRODUTIVO EM
RELAÇÃO AOS CASAMENTOS CONSANGUÍNEOS NO NORDESTE DO BRASIL**

Shirley de Oliveira Alves de Lima

CAMPINA GRANDE- PB

SETEMBRO DE 2018

Shirley de Oliveira Alves de Lima

**ESTUDO SOBRE ATITUDE POSITIVA E COMPORTAMENTO REPRODUTIVO EM
RELAÇÃO AOS CASAMENTOS CONSANGUÍNEOS NO NORDESTE DO BRASIL**

*Dissertação apresentada à Universidade
Estadual da Paraíba – UEPB, em
cumprimento dos requisitos necessários
para obtenção do título de Mestre em
Saúde Pública, Área de concentração
Saúde Pública.*

Orientadora: Profa. Dra. Silvana Cristina dos Santos.

CAMPINA GRANDE- PB

SETEMBRO DE 2018

É expressamente proibido a comercialização deste documento, tanto na forma impressa como eletrônica. Sua reprodução total ou parcial é permitida exclusivamente para fins acadêmicos e científicos, desde que na reprodução figure a identificação do autor, título, instituição e ano do trabalho.

L732e Lima, Shirley de Oliveira Alves de.
Estudo sobre atitude positiva e comportamento reprodutivo em relação aos casamentos consanguíneos no nordeste do Brasil [manuscrito] / Shirley de Oliveira Alves de Lima. - 2018.
52 p.
Digitado.
Dissertação (Mestrado em Saúde Pública) - Universidade Estadual da Paraíba, Pró-Reitoria de Pós-Graduação e Pesquisa, 2019.
"Orientação : Profa. Dra. Silvana Cristina dos Santos, Coordenação de Curso de Biologia - CCBS."
1. Consanguinidade. 2. Comportamento reprodutivo. 3. Casamento consanguíneo. 4. Matrimônio. I. Título
21. ed. CDD 306.81

FOLHA DE APROVAÇÃO

NOME DO CANDIDATO: Shirley de Oliveira Alves de Lima

ESTUDO SOBRE ATITUDE POSITIVA E COMPORTAMENTO REPRODUTIVO EM
RELAÇÃO AOS CASAMENTOS CONSANGUÍNEOS NO NORDESTE DO BRASIL

Orientadora: Profa. Dra. Silvana Cristina dos Santos.

Dissertação apresentada à Universidade
Estadual de Paraíba - UEPB, em
cumprimento dos requisitos necessários
para obtenção do título de Mestre em
Saúde Pública, Área de concentração
Saúde Pública.

Aprovada em 28 de Setembro de 2018

Banca Examinadora

Assinatura

Prof. Dr.^a Silvana Cristina dos Santos

Assinatura

Prof. Dr. Matheus Vieira

Assinatura

Prof. Dr. Lívio Souto Melo

Aos meus pais, pela dedicação, companheirismo
e amizade, DEDICO.

AGRADECIMENTOS

Agradeço à minha orientadora, Prof^a. Dra. Silvana Santos, por mais um ciclo de aprendizado, generosidade, muita paciência e dedicação para a concretização deste trabalho.

Aos companheiros de pesquisa Yanna Marques e Victor Albino pela persistência e apoio constante no processo de execução da pesquisa. Aos alunos de iniciação científica, Stephanie, Bárbara e Maria Clara que foram “escravizadas” durante a consolidação dos dados e felizmente sobreviveram.

Ao Prof. Ricardo Olinda por nos mostrar a beleza da Estatística. Ao Prof. Leandro Ucela, pelas conversas cotidianas e a oportunidade de aprendizado. A todos os membros do Núcleo de Estudos em Genética e Educação (NEGE/UEPB) que nesses sete anos de convivência tanto me ensinaram. Em especial, ao Allysson Allan Farias e Aluska Mathias do NEGE Raiz. E também aos novatos do projeto SABE: Júlia, Raisa, Javanna, Jaiza, Juliana, e tantos outros nigerianos.

A toda a população de Brejo dos Santos, em especial aos idosos que tão gentilmente abriram as portas para nossa equipe. A todos os profissionais da área da Saúde, dos Agentes Comunitários de Saúde à Secretária de Saúde, que foram muito parceiros nesse processo. Em especial, à Kalina que com sua hospitalidade regada a muita cajarana tornou muito mais prazerosa a nossa coleta de campo.

Aos professores do mestrado em Saúde Pública, pelos conhecimentos compartilhados e por nos ensinar quão importante é o comprometimento com a docência e o impacto disso na sociedade. E aos colegas de curso pela união em todas as dificuldades e conquistas nessa trajetória.

À minha família que durante esse período me perdoaram pelas faltas, em especial ao meu querido pai, que mesmo não sendo mais possível compartilhar desse momento, sei que desde o início torceu por mim. Às minhas amigas Silmara, Elvira, Flávia e Vera, que me acompanham e me deram o suporte necessário para chegar até aqui. A todos os meus amigos do MARACAGRANDE que acrescentaram mais alegria aos meus dias.

Agradecimento especial às agências de Fomento à Pesquisa (CAPES, FAPESP e FAPESQ) e à Universidade Estadual da Paraíba (PROPESQ) pelos auxílios à pesquisa fundamentais para manutenção dos pesquisadores em campo. Especialmente, pela oportunidade de ter sido bolsista e me dedicar à pesquisa.

Tudo *aquilo que o homem ignora* não existe para ele. Por isso o universo de cada um se resume ao tamanho de seu saber. (Albert Einstein)

RESUMO

Este trabalho é o primeiro estudo transversal de base populacional que buscou investigar as diferenças nas crenças, atitudes e comportamento reprodutivo de uma população em relação à consanguinidade no sertão nordestino. A coleta de dados consistiu em entrevistas face a face realizadas com 147 indivíduos com idades entre 13 e 20 anos, representando a totalidade de estudantes do ensino médio da comunidade de Brejo dos Santos e 532 idosos com 60 anos ou mais. A frequência de casamentos consangüíneos tendeu a aumentar ao longo das gerações, sendo 15,9% na geração dos pais dos idosos participantes, 17,1% em geração própria e 20,5% na geração de seus descendentes. Embora 258 (50,9%) idosos entrevistados tenham rejeitado a união consanguínea, 341 (65,3%) deles permitiriam que seus filhos se casassem com parentes. Tanto os jovens (108 ou 78,3%) quanto os idosos (398 ou 80,4%) entrevistados acreditam que os casamentos consangüíneos são mais duráveis do que os casamentos não consangüíneos ($p = 0,578$). No entanto, 408 (82,4%) dos idosos e 108 (80,6%) dos estudantes reconhecem que os cônjuges em casais consangüíneos vivenciam conflitos como outros casais ($p = 0,625$). Em ambos os grupos, a maioria dos participantes não acredita que o risco de ter filhos com deficiência esteja associado à consanguinidade. A regressão com duas variáveis contínuas, idade e pontuação de atitudes positivas, mostrou uma correlação significativa entre elas, sugerindo que indivíduos mais jovens são mais suscetíveis à influência de fatores culturais favoráveis à consanguinidade, como a opinião de seus pais e avós. A atitude positiva em relação à consanguinidade está ligada à crença de que as uniões entre indivíduos da mesma família contribuem para uma maior estabilidade e durabilidade do casamento.

Palavras-chave: Consanguinidade, Matrimônio e Seleção de Companheirismo, Biologia da População Humana.

ABSTRACT

This work is the first population-based cross-sectional study that sought to investigate the differences in the beliefs, attitudes and reproductive behavior of a population in relation to consanguinity in the backlands of Northeastern Brazil. Data collection consisted of face-to-face interviews performed with 147 individuals ages 13 to 20, representing the totality of high school students of Brejo dos Santos community and 532 elderly individuals aged 60 years and over. The frequency of consanguineous marriages tended to increase over the generations, being 15.9% in the generation of the parents of the elderly participants, 17.1% in their own generation and 20.5% in the generation of their descendants. Although 258 (50.9%) elderly interviewees rejected consanguineous union, 341 (65.3%) of them would allow their children to marry relatives. Both young (108 or 78.3%) and elderly (398 or 80.4%) interviewees believe that consanguineous marriages are more durable than non-consanguineous marriages ($p = 0.578$). However, 408 (82.4%) of the elderly individuals and 108 (80.6%) of the students recognize that the spouses in consanguineous couples experience conflicts like other couples ($p = 0.625$). In both groups, the majority of the participants do not believe that the risk of having children with disabilities is associated with consanguinity. The regression with two continuous variables (age and positive attitudes score) showed a significant correlation between them, suggesting that younger individuals are more susceptible to the influence of cultural factors contributing to consanguinity, such as the opinion of their parents and grandparents. The positive attitude toward consanguinity is linked to the belief that unions between individuals from the same family contribute to greater marriage stability and durability.

Key-words: Consanguinity, Marriage and Mate Selection, Human Population Biology

LISTA DE SIGLAS

IBGE - INSTITUTO BRASILEIRO DE GEOGRAFIA E ESTATÍSTICA

IDH - ÍNDICE DE DESENVOLVIMENTO HUMANO

NEGE – NÚCLEO DE ESTUDOS EM GENÉTICA E EDUCAÇÃO

PRODUTO INTERNO BRUTO (PIB)

SPOAN - SPASTIC PARAPLEGIA, OPTIC ATROPHY E NEUROPATHY

LISTA DE TABELAS

Tabela 1: Perfil da população idosa e de estudantes do ensino médio de Brejo dos Santos. 28

Tabela 2 - Resultado de Teste Anova (Kruskal Wallis) para Amostras Independentes comparando crenças, atitudes e valores sobre consanguinidade e deficiência entre jovens e idosos. 31

Tabela 3 - Comparação das crenças, atitudes e valores no grupo de idosos que se casaram ou não com parentes. 35

LISTA DE FIGURAS

Figura1: Regressão linear mostrando correlação entre a variável idade e "score", resultado da somatória da pontuação das dez questões sobre consanguinidade. 30

SUMÁRIO

1 APRESENTAÇÃO	13
2 OBJETIVOS	17
2.1 OBJETIVO GERAL	17
2.2 OBJETIVOS ESPECÍFICOS	17
3 RESULTADOS	18
3.1 ARTIGO CIENTÍFICO	19
4 CONSIDERAÇÕES FINAIS	46
APÊNDICE I – Formulário de coleta de dados em campo (idosos)	48
APÊNDICE II - Formulário de coleta de dados em campo (estudantes)	50
ANEXO I – Comprovante de publicação de artigo científico (Qualis A1 para área de Saúde Coletiva)	52
ANEXO II – Comprovante de aprovação do projeto junto ao Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos	53

1 APRESENTAÇÃO

O Núcleo de Estudos em Genética e Educação (NEGE) da Universidade Estadual da Paraíba vem estudando, há cerca de dez anos, as doenças genéticas que acometem as populações do Nordeste brasileiro com tradição de união consanguínea. Essas pesquisas derivaram da descoberta de uma doença genética recessiva nomeada como Síndrome SPOAN com mais de 80 indivíduos afetados da região do alto oeste do estado do Rio Grande do Norte (MACEDO-SOUZA *et al.*, 2005, 2009 MELO *et al.*, 2015). Uma das vertentes das pesquisas é o entendimento de como as pessoas compreendem o fenômeno hereditário, se elas entendem que a doença é transmitida de geração para geração e que os casamentos consanguíneos elevam o risco de nascimento de crianças com doenças genéticas. Isso é importante porque a tomada de decisão reprodutiva depende do conhecimento sobre transmissão das doenças ao longo das gerações.

No mundo cerca de 10% dos casamentos ocorrem entre pessoas aparentadas (BITTLES, 2008). Na região nordeste do Brasil, a frequência de casamentos consanguíneos chega a ser 15 vezes mais elevada do que no Sudeste (FREIRE-MAIA, 1957, 1989). Recentemente, uma pesquisa realizada por nosso grupo demonstrou que em média 20% dos casamentos na Paraíba acontecem entre pessoas aparentadas (WELLER *et al.*, 2012). A consanguinidade eleva o risco de nascimento de crianças com doenças genéticas, especialmente aquelas de herança recessiva que estão associadas com graves deficiências, como intelectual, auditiva, visual ou motora. Algumas evidências apontam que 30% a 50% das deficiências no nordeste brasileiro tenham etiologia genética (WELLER *et al.*, 2013, SANTOS *et al.*, 2013, 2014). Por essa razão, a consanguinidade no Nordeste brasileiro precisa ser compreendida como um problema de Saúde Pública.

Há diferentes fatores etiológicos e determinantes sociais associados à prevalência de pessoas com deficiência. Os pesquisadores, ao estudar esses diferentes fatores, devem considerar também o comportamento reprodutivo que é derivado de uma cultura. Como mencionado anteriormente, no Nordeste brasileiro, as pessoas tem o comportamento de se casar com parentes; esse hábito é conservado ao longo das gerações por tradições culturais e valores compartilhados pelas famílias

e comunidades. Para planejamento de ações de prevenção e mitigadoras, é necessário compreender profundamente as concepções, crenças e valores das comunidades que conservam a tradição da consanguinidade. As concepções sobre herança de famílias que convivem com doenças genéticas já foram estudadas por (SANTOS 2005, 2006). Esses trabalhos serviram de base para estudos como o de (SIEDSHLAG, 2008), no qual foi desenvolvido um método para análise de concepções sobre a origem das deficiências em famílias consanguíneas. Com o intuito de prosseguir nessa linha de pesquisa, essa dissertação têm o propósito de preencher mais uma lacuna nessa busca de compreender o fenômeno da consanguinidade.

A proposta inicial deste projeto era dar continuidade à pesquisa iniciada pela Profa. Dra. Silvana Santos sobre as concepções e modelos de herança em comunidades que convivem com fenômeno hereditário há várias gerações. Meu papel seria o de analisar os dados já coletados na pesquisa. Entretanto, durante esse processo surgiu a oportunidade de participar do trabalho de campo do projeto Saúde, Bem-estar e Envelhecimento (SABE) junto à população de Brejo dos Santos, na Paraíba, com financiamento do INCT/CEGH/USP. Neste caso, eu auxiliei na concepção de um recorte de uma pesquisa e realizei a coleta de dados em campo, bem como toda a análise estatística. Disso derivou o artigo que será apresentado como principal produção científica do meu trabalho de mestrado. Face à minha empolgação com essa pesquisa e vários outros problemas de natureza familiar, eu não tive tempo de concluir a análise dos dados referentes à pesquisa feita no Rio Grande do Norte, que ficará para o futuro.

No Brasil, o Centro de Estudos do Genoma Humano vem realizando estudos pioneiros sobre a genética da longevidade há alguns anos, envolvendo idosos com 80 anos ou mais. Essas pesquisas resultaram, por exemplo, na criação de um banco de dados genômicos de idosos brasileiros (ABRAOM). Esse trabalho tem contado com a colaboração de epidemiologistas da Faculdade De Saúde Pública da Universidade de São Paulo que desenvolvem, há quase vinte anos, uma pesquisa longitudinal com várias coortes de idosos do município de São Paulo conhecida por Estudo Saúde, Bem Estar e Envelhecimento (Estudo SABE/SP), o qual fora iniciado em virtude de uma iniciativa da Organização Pan-Americana da Saúde (OPAS) com participação de vários países da América Latina. Essa colaboração entre epidemiologistas e geneticistas deu origem ao projeto intitulado “Envelhecimento e Doenças Genéticas:

Genômica e Metagenômica”, aprovado na chamada INCT/MCTI/CNPq/CAPES/FAPs nº 16/2014. Uma das vertentes desse projeto colaborativo é a ampliação do estudo SABE em termos metodológicos e populacionais, com a inclusão de análises genômicas e a inclusão de outras populações brasileiras com algumas características específicas, como a consanguinidade.

Em 2017, na Paraíba, pesquisadores do Núcleo de Estudos em Genética e Educação da UEPB escolheram o município de Brejo dos Santos para iniciar o projeto em colaboração SABE-PB, basicamente replicando as pesquisas realizadas em São Paulo. Essa localidade foi escolhida por conveniência pelo fato dos pesquisadores da UEPB já terem realizado vários estudos com aquela população, inclusive com a identificação de vários afetados com deficiência intelectual causada por mutações no gene *IMPA1*. Essa população tem elevada frequência de casamentos consanguíneos, vive relativamente isolada em um município da microrregião de Catolé do Rocha, no sertão paraibano, fazendo divisa com municípios do Rio Grande do Norte. Toda a população possui condições socioeconômicas similares do que resulta em estilo de vida

Diferentemente dos estudos realizados anteriormente pela Profa. Silvana Santos (SANTOS 2005 e 2006), nos quais havia sempre alguma pessoa com doença genética; neste trabalho, foram investigadas as crenças, atitudes e comportamento de todos os indivíduos de diferentes gerações em uma comunidade. Ou seja, foi possível avaliar a totalidade dos indivíduos que estavam frequentando a escola e todos os idosos com 60 anos ou mais. Dessa forma, foi possível compreender as diferenças em relação às percepções e atitudes, mas também comparar as diferenças em relação às atitudes entre casais consanguíneos e não-consanguíneos. De forma surpreendente, verificamos, como mostram os resultados, que o que realmente faz uma pessoa casar-se com parente, em Brejo dos Santos, é a crença de que as uniões entre pessoas aparentadas são mais duradouras.

Esta dissertação está organizada no formato de artigo científico, tendo sido incluído a versão em português do artigo submetido ao periódico “Journal of Biosocial Science”, Qualis A2 para Saúde Coletiva. Além deste trabalho, participei, como coautora, de um trabalho já publicado no periódico BMC Health Services Research,

Qualis A1 (LOPES *et al.*, 2017) sobre a fidedignidade de dados colhidos por agentes comunitários de saúde (Vide Anexo 1)

2 OBJETIVOS

2.1 OBJETIVO GERAL

- Investigar as diferenças nas crenças, atitudes e comportamento reprodutivo da população de Brejo dos Santos em relação à consanguinidade.

2.2 OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- Analisar se a prevalência de crenças, atitudes e comportamentos positivos em relação aos casamentos consanguíneos sofre mudanças ao longo das gerações.
- Examinar se há diferenças na prevalência de crenças, atitudes e comportamentos positivos em relação à consanguinidade nos grupos de casais consanguíneos e não consanguíneos.
- Identificar quais fatores (sexo, idade, religião, opinião dos pais, estabilidade de casamentos consanguíneos, vivência com o fenômeno hereditário, risco de ter filho deficiente, ter filhos ou irmãos deficientes) influenciam na atitude e comportamento reprodutivo positivo em relação à consanguinidade.

3 RESULTADOS

Os resultados deste trabalho consistem na produção de artigo científico para publicação, cujo conteúdo foi reproduzido integralmente a seguir.

3.1 Artigo A:

ESTUDO SOBRE ATITUDE POSITIVA E COMPORTAMENTO REPRODUTIVO EM RELAÇÃO AOS CASAMENTOS CONSANGUÍNEOS NO NORDESTE DO BRASIL

A POPULATION-BASED SECTIONAL STUDY OF POSITIVE ATTITUDE AND REPRODUCTIVE BEHAVIOR TOWARDS CONSANGUINEOUS MARRIAGES IN NORTHEASTERN BRAZIL.

RUNNING HEAD: ATTITUDES TOWARDS CONSANGUINITY IN NORTHEASTERN BRAZIL

**LIMA SOA¹; FARIAS, AA²; ALBINO VA¹; MARQUES-ALVES YK¹; OLINDA R³;
SANTOS-SILVA, TA⁴; ALVES, L.U^{1,2}.; ZATZ, M. ²; SANTOS S¹**

¹ Community Genetics Group, Universidade Estadual da Paraíba

² Department of Genetics, Universidade de São Paulo

³ Department of Statistics, Universidade Estadual da Paraíba

⁴ Faculty of Arts and Humanities, Sorbonne Université

Corresponding author:

Prof Dr Silvana Santos

Rua das Baraúnas, s/n - Prédio da Integração Acadêmica - sala 329

Universidade Estadual da Paraíba - Campus I – Bodocongó

Campina Grande - Paraíba

+55 (83) 3344-5306

e-mail: silvanaipe@gmail.com, silvanasantos@ccbs.uepb.edu.br

RESUMO

Este trabalho é o primeiro estudo transversal de base populacional que buscou investigar as diferenças nas crenças, atitudes e comportamento reprodutivo de uma população em relação à consanguinidade no sertão nordestino. A coleta de dados consistiu em entrevistas face a face realizadas com 147 indivíduos com idades entre 13 e 20 anos, representando a totalidade de estudantes do ensino médio da comunidade de Brejo dos Santos e 532 idosos com 60 anos ou mais. A frequência de casamentos consangüíneos tendeu a aumentar ao longo das gerações, sendo 15,9% na geração dos pais dos idosos participantes, 17,1% em geração própria e 20,5% na geração de seus descendentes. Embora 258 (50,9%) idosos entrevistados tenham rejeitado a união consanguínea, 341 (65,3%) deles permitiriam que seus filhos se casassem com parentes. Tanto os jovens (108 ou 78,3%) quanto os idosos (398 ou 80,4%) entrevistados acreditam que os casamentos consangüíneos são mais duráveis do que os casamentos não consangüíneos ($p = 0,578$). No entanto, 408 (82,4%) dos idosos e 108 (80,6%) dos estudantes reconhecem que os cônjuges em casais consangüíneos vivenciam conflitos como outros casais ($p = 0,625$). Em ambos os grupos, a maioria dos participantes não acredita que o risco de ter filhos com deficiência esteja associado à consanguinidade. A regressão com duas variáveis contínuas (idade e pontuação de atitudes positivas) mostrou uma correlação significativa entre elas, sugerindo que indivíduos mais jovens são mais suscetíveis à influência de fatores culturais que contribuem para a consanguinidade, como a opinião de seus pais e avós. A atitude positiva em relação à consanguinidade está ligada à crença de que as uniões entre indivíduos da mesma família contribuem para uma maior estabilidade e durabilidade do casamento.

Palavras-chave: Consanguinidade, Matrimônio e Seleção de Companheirismo, Biologia da População Humana.

ABSTRACT

This work is the first population-based cross-sectional study that sought to investigate the differences in the beliefs, attitudes and reproductive behavior of a population in relation to consanguinity in the backlands of Northeastern Brazil. Data collection consisted of face-to-face interviews performed with 147 individuals ages 13 to 20, representing the totality of high school students of Brejo dos Santos community and 532 elderly individuals aged 60 years and over. The frequency of consanguineous marriages tended to increase over the generations, being 15.9% in the generation of the parents of the elderly participants, 17.1% in their own generation and 20.5% in the generation of their descendants. Although 258 (50.9%) elderly interviewees rejected consanguineous union, 341 (65.3%) of them would allow their children to marry relatives. Both young (108 or 78.3%) and elderly (398 or 80.4%) interviewees believe that consanguineous marriages are more durable than non-consanguineous marriages ($p = 0.578$). However, 408 (82.4%) of the elderly individuals and 108 (80.6%) of the students recognize that the spouses in consanguineous couples experience conflicts like other couples ($p = 0.625$). In both groups, the majority of the participants do not believe that the risk of having children with disabilities is associated with consanguinity. The regression with two continuous variables (age and positive attitudes score) showed a significant correlation between them, suggesting that younger individuals are more susceptible to the influence of cultural factors contributing to consanguinity, such as the opinion of their parents and grandparents. The positive attitude toward consanguinity is linked to the belief that unions between individuals from the same family contribute to greater marriage stability and durability.

Key-words: Consanguinity, Marriage and Mate Selection, Human Population Biology.

INTRODUÇÃO

A prevalência de casamentos consanguíneos no mundo é de 10% (SMALL *et al.*, 2016). Essas uniões elevam o risco de nascimento de crianças com doenças genéticas devido à maior probabilidade de existirem alelos deletérios em homozigose. Em comunidades rurais e isolados populacionais onde são encontradas famílias mais numerosas e tradicionais, com baixo nível socioeconômico e de escolaridade materna, foram observadas as maiores taxas de consanguinidade (BITTLES and BLACK, 2010; BHOPAL *et al.*, 2013). No Oriente Médio, por exemplo, onde 40 a 50% dos casamentos ocorrem entre pessoas aparentadas, foram descritas várias mutações novas associadas às doenças de herança autossômica recessivas, as quais causam diferentes formas de deficiência física, intelectual, visual e auditiva (BITTLES and BLACK, 2010; BHOPAL *et al.*, 2013).

A tradição de casamentos consanguíneos também está presente nas populações do Nordeste brasileiro, onde ocorre quinze vezes mais uniões consanguíneas do que no Sudeste (FREIRE-MAIA, 1957). Em estudo recente, envolvendo 39 comunidades da Paraíba, foi verificado que a porcentagem de casamentos consanguíneos variou de 6% a 41% (coeficiente de endocruzamento de 0.00602 +/- 0.00253 (WELLER *et al.*, 2012). Os casais consanguíneos dessa região têm maior fecundidade e maior proporção de filhos com deficiência (NERI *et al.*, 2003; WELLER *et al.*, 2012; WELLER and SANTOS, 2013). Essa diferença em relação ao comportamento reprodutivo entre as duas regiões geográficas brasileiras não foi explicada por fatores socioeconômicos, sendo consequência, provavelmente, de fatores culturais (WELLER *et al.*, 2012).

No Nordeste brasileiro também foram descritos vários clusters de doenças genéticas (E. CASTILLA and SCHULER-FACCINI, 2014; PASSOS-BUENO *et al.*, 2014). Em comunidades rurais dessa região, cerca de 50% das deficiências auditivas (MELO *et al.*; 2014) e das doenças neuromusculares foram causadas por fatores genéticos (SANTOS *et al.*, 2013a, 2014). Algumas patologias de herança autossômica recessiva associadas às elevadas frequências de consanguinidade foram descritas pela primeira vez nessa região como a síndrome Spooan (MIM#611729) causada por

deleção na região regulatória do gene *KCL2* (MACEDO-SOUZA *et al.*, 2005; MELO *et al.*, 2015) duas formas de deficiência intelectual associadas aos genes *MED25* e *IMPA1* (FIGUEIREDO *et al.*, 2015, 2016); e a síndrome Santos que causa defeito de membros e foi associada à mutação no gene *WNT7A* (SANTOS *et al.*, 2008; ALVES *et al.*, 2017).

O comportamento reprodutivo em relação à consanguinidade é determinado por crenças, valores e atitudes. Esses fatores têm sido estudados extensivamente em comunidades do Oriente Médio (SANDRIDGE *et al.*, 2009; HARKNESS and KHALED, 2014; ALNAQEB *et al.*, 2016; MAZHARUL ISLAM, 2017). Na Arábia Saudita, por exemplo, um estudo envolvendo 386 adultos mostrou que 41% deles tinham menor desempenho do que a média em relação à compreensão das consequências da consanguinidade, sendo que o nível de conhecimento sobre o risco aumentava com o grau de instrução e com a influência da informação de amigos (AHMED *et al.*, 2016).

No Brasil, um estudo com familiares de pacientes com a síndrome SPOAN mostrou que eles compartilham uma narrativa na qual um ancestral, especificamente, o velho Maximiano, teria tido uma sífilis hereditária que seria transmitido pelo sangue para seus descendentes, causando o nascimento de pessoas com grave deficiência (SANTOS and BIZZO, 2005). Nessa comunidade com mais de 70 afetados pela síndrome Sp oan, as pessoas tendem a negar a relação entre consanguinidade e o risco de nascimento de crianças com doença genética (SANTOS and BIZZO, 2005). Outro estudo mostrou que as explicações sobre risco e consanguinidade entre consulentes de serviços de aconselhamento genético variam muito a depender da escolaridade, número de afetados na família e gravidade da doença (SANTOS, 2006).

Por que as pessoas do nordeste brasileiro se casam com parentes? Este trabalho é o primeiro estudo transversal de base populacional que buscou investigar as diferenças nas crenças, atitudes e comportamento reprodutivo de uma população em relação à consanguinidade. Na comunidade de Brejo dos Santos, no interior do nordeste brasileiro, investigamos como o universo de estudantes do ensino médio e idosos com 60 anos ou mais entendem a relação entre consanguinidade e risco de nascimento de crianças com deficiência. Os indivíduos acreditam que casais aparentados têm mais risco de nascimento de descendentes acometidos por doenças genéticas? O risco ou probabilidade de nascimento de crianças com alguma

deficiência é um fator que influencia a tomada de decisão reprodutiva nessa comunidade?

Na obra “Rápido e Devagar”(KAHNEMAN, 2011), Daniel Kahneman explicou que existem mecanismos cognitivos em relação à ideia de risco e como as pessoas utilizam evidências do cotidiano para tomada de decisão. Diante, por exemplo, de uma situação em que há uma probabilidade de perder algo com maior ganho e de outra com menor ganho sem qualquer tipo de risco, as pessoas tendem a escolher a segunda opção para reduzir a incerteza. Na vida cotidiana, as informações sobre probabilidade e riscos de ocorrência de eventos não são utilizadas para tomada de decisões. Nossa hipótese de trabalho considera que, se houver um mecanismo cognitivo relativo à ideia de risco, a frequência de quem associa risco à deficiência não se dará ao acaso.

A população escolhida nesta pesquisa tem alta prevalência de casamentos consanguíneos e convive com o fenômeno hereditário há várias gerações, portanto, eles têm evidências que poderiam favorecer a compreensão da relação entre consanguinidade e o risco de nascimento de crianças com deficiência. Será que os indivíduos que escolheram casar-se com parentes pensam de forma diferente daqueles que não fizeram essa opção reprodutiva? Será que os idosos que convivem com casais consanguíneos e não consanguíneos acreditam que os primeiros têm mais risco de prole deficiente?

Neste trabalho, buscamos responder às seguintes questões:

1 - A prevalência de crenças, atitudes e comportamentos positivos em relação aos casamentos consanguíneos muda ao longo das gerações?

2 - A prevalência de crenças, atitudes e comportamentos positivos em relação à consanguinidade é diferente nos grupos de casais consanguíneos e não consanguíneos?

3 - Quais fatores dentre aqueles investigados (sexo, idade, religião, opinião dos pais, estabilidade de casamentos consanguíneos, vivência com o fenômeno hereditário, risco de ter filho deficiente, ter filhos ou irmãos deficientes) influenciam a atitude e o comportamento reprodutivo positivo em relação à consanguinidade?

MATERIAIS E MÉTODOS

Características gerais do estudo

Este é um estudo transversal de base populacional de abordagem quantitativa, realizado no município de Brejo dos Santos (PB). O município tinha 6.198 habitantes (IBGE, 2010), sendo que 525 indivíduos estavam na faixa etária de 15 - 19 anos (279 homens e 246 mulheres); e 876 eram maiores de 60 anos (415 homens e 461 mulheres). A educação básica no Brasil é obrigatória e, segundo o IBGE em 2015, a quantidade de estudantes matriculados na educação básica é de 1054 indivíduos, sendo 885 estudantes do ensino fundamental e 169 do ensino médio. O Índice de Desenvolvimento Humano (IDH) é de 0,619 e o Produto Interno Bruto (PIB) per capita de 7.223,37 reais. O município foi selecionado por conveniência, pois nele já havia sido realizado estudos prévios sobre consanguinidade e confiabilidade de informação colhida por agentes comunitários de saúde (WELLER *et al.*, 2012; LOPES *et al.*, 2017).

A população estudada foi subdividida em dois grupos. O primeiro é um grupo de 147 jovens com faixa etária de 13 até 20 anos de idade, representando a totalidade dos estudantes do Ensino Médio dos turnos da manhã e tarde da escola estadual do município, excluídos os estudantes evadidos e em abandono que não foram encontrados durante o período da pesquisa.

O segundo grupo foi composto por 731 idosos com 60 anos ou mais, os quais foram indicados pelos agentes comunitários de saúde e sobre os quais foram colhidas informações sócio-demográficas. Desse universo, 532 aceitaram realizar entrevista face-a-face semi-estruturada sobre a temática da consanguinidade. O restante não concordou em participar da entrevista ou não foram localizados em suas residências em três diferentes tentativas no período de coleta de dados. Na maior parte dos casos, os idosos não foram localizados por estarem trabalhando em suas lavouras de subsistência.

A coleta de dados consistiu na realização de entrevistas face-a-face, a partir de um roteiro estruturado dividido em duas seções. A primeira seção continha questões

para traçar perfil sócio-demográfico, como nome, sexo (feminino e masculino), idade, religião (católico ou protestante), histórico familiar de casamentos consanguíneos, número de irmãos ou filhos de um casal e/ou estudante, número de filhos e/ou irmãos com deficiência.

A segunda seção era composta por dez questões sobre as concepções, atitudes e comportamentos em relação à consanguinidade e o risco de nascimento de crianças com doenças genéticas. Os participantes tinham apenas duas opções de respostas, ou eles concordavam ou discordavam completamente da proposição. Ao concordar, os participantes demonstravam sempre uma atitude ou comportamento positivo em relação à consanguinidade.

A primeira pergunta abrangia a atitude positiva (aceitação) em relação aos casamentos consanguíneos; a segunda, se o casal aceitava a união de seus filhos com parentes ou, no caso dos estudantes, se eles namorariam com um parente; a terceira e quarta questões investigaram se os pais ou avós, respectivamente, dos idosos e/ou estudantes apoiavam esse tipo de união. Na quinta, foi perguntado se havia alguma restrição às uniões consanguíneas na religião seguida pelo entrevistado. As duas próximas perguntas tratavam do relacionamento entre casais consanguíneos, sendo perguntado se entre eles havia menos brigas e se a união era mais duradoura. A oitava e a nona perguntas diziam respeito à vivência com o fenômeno hereditário, sendo investigado se o participante conhecia casais de primos com filhos deficientes ou se conheciam casais não-consanguíneos com prole deficiente. Na última questão, foi perguntado aos participantes se o risco de nascimento de crianças deficientes era o mesmo entre casais consanguíneos e não consanguíneos.

Para realizar análise estatística, foi criado um “score” a partir da pontuação de cada resposta do entrevistado. Cada resposta positiva em relação à consanguinidade recebeu dois pontos e as negativas, um ponto. Assim, a somatória da pontuação de todas as questões constituiu um “score” que poderia variar de 0 até 20 pontos e foi utilizada para análise estatística. Se uma pessoa, por exemplo, não visse problema nesse tipo de casamento, permitisse que seus filhos casassem com parentes, não tivesse nenhum tipo de restrição dos pais ou da religião, conhecesse casais consanguíneos e não consanguíneos com filhos deficientes e acreditasse que o risco

era o mesmo entre esses casais para ter um filho deficiente, ou seja, se a pessoa tivesse posições muito favoráveis à consanguinidade, então ela atingiria a pontuação máxima do questionário: 20 pontos. Para aqueles que não quiseram responder ou disseram que não sabiam, então era pontuado como zero, de tal forma que a soma total não fosse afetada pela ausência de uma resposta.

Antes da realização da entrevista, os objetivos da pesquisa foram explicados aos participantes para assinatura do termo de consentimento livre esclarecido. O instrumento de coleta foi aplicado; respeitando aos preceitos éticos e as ações do projeto foram iniciadas após aprovação pelo Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos da Universidade Estadual da Paraíba.

Análise estatística

Os dados foram colhidos por quatro entrevistadores (LSOA, AV, MYK, SS), sendo posteriormente codificados, tabulados e submetidos à análise estatística por meio do software *R studio* (ARAGON, 2008; TEAM and OTHERS, 2013). Cada uma das dez perguntas do questionário foi considerada como uma variável dependente assim como o “score” resultado da somatória da pontuação de todas as questões, e as variáveis preditoras abrangeram as informações sociodemográficas. Além da estatística descritiva, foi realizada a estatística analítica por meio do uso do teste de Qui-quadrado para comparar a frequência das respostas entre os grupos dos idosos e jovens, assim como os grupos de casais consanguíneos e não consanguíneos. Foi realizada também a regressão de Poisson correlacionando os valores de “score” e a idade, assim como a análise log-linear para descrever os modelos de associação das variáveis categóricas entre si. O valor de significância adotado foi de 5%.

RESULTADOS

Perfil da População

Foram colhidas informações sócio-demográficas a respeito de 731 idosos e, deste universo, 532 idosos foram entrevistados constituindo a amostra deste estudo. A idade média da população de idosos foi de $70,33 \pm 9,86$ e da nossa amostra, $70,43 \pm 8,90$, mostrando que não havia diferença significativa. Em relação ao sexo, observou-se maior representação de mulheres (59,4%) na amostra entrevistada do que na população de idosos (56%). Em relação aos demais parâmetros, como religião (65% de católicos) e estado civil (50% de católicos), não se observou diferença significativa entre os dois grupos de tal maneira a evidenciar que a amostra entrevistada de idosos representa a população de idosos do município (Tabela 1).

Tabela 1 - Perfil da população idosa e de estudantes do ensino médio de Brejo dos Santos.

	Dados de idosos	Idosos entrevistados	Estudantes entrevistados
População amostrada	N= 731	N= 532	N= 147
Idade	70,33 \pm 9,86	70,43 \pm 8,90	15,78 \pm 1,35
Sexo			
Feminino	409 (56%)	316 (59,4%)	68 (46,3%)
Masculino	322 (44%)	216 (40,6%)	79 (53,7%)
Religião			
Católicos	464 (64,4%)	347 (65,2%)	61 (41,5%)
Evangélicos e protestantes	206 (28,6%)	160 (30,1%)	60 (40,8%)
Nenhuma e/ou outras religiões	51 (7,1%)	25 (4,7%)	26 (17,7%)
Estado civil			
Solteiro	38 (5,2%)	27 (5,1%)	147 (100%)
Casado ou união estável	366 (50,1%)	274 (50,5%)	
Divorciado	91 (12,4%)	63 (11,8%)	
Viúvo	236 (32,3%)	168 (31,6%)	
União consanguínea			
União não-consanguínea	575 (82,7%)	426 (82,9%)	
União consanguínea	123 (17,6%)	88 (17,1%)	
Grau de parentesco do casal			
Não aparentado	575 (82,7%)	425 (83,3%)	
Tio/Sobrinha	0 (0%)	0 (0%)	
Primos duplos	01 (0,1%)	01 (0,2%)	
Primos 1o grau	32 (4,6%)	22 (4,3%)	
Primos 2o grau	23 (3,3%)	18 (3,5%)	

Primos 3o grau	24 (3,5%)	20 (3,9%)	
Parentes distantes	40 (5,8%)	24 (4,7%)	
Consanguinidade parental			
União não-consanguínea	518 (83,1%)	412 (84,1%)	135 (93,1%)
União consanguínea	105 (16,9%)	78 (15,9%)	10 (6,9%)
Grau de parentesco parental			
Não aparentado	515 (83,2%)	409 (84,0%)	135 (93,1%)
Tio/Sobrinha	03 (0,5%)	03 (0,6%)	0
Primos duplos	06 (1%)	06 (1,2%)	0
Primos 1o grau	57 (9,2%)	42 (8,6%)	04 (2,8%)
Primos 2o grau	04 (0,6%)	03 (0,6%)	0
Primos 3o grau	01 (0,2%)	01 (0,2%)	0
Parentes distantes	33 (5,3%)	23 (4,7%)	06 (4,1%)
Número de filhos do casal*			
Média de filhos por casal	5,19±3,00	5,34±3,05	2,57±1,11
Média de filhos vivos	4,79±2,85	4,92±2,89	2,56±1,12
Filhos casados com parentes			
União não-consanguínea		372 (79,5%)	
União consanguínea		96 (20,5%)	
Parentes com deficiência			
Nenhum parente deficiente	499 (78,7%)	364 (77,9%)	143 (97,3%)
Parente com deficiência	135 (21,3%)	103 (22,1%)	04 (2,7%)

Em relação aos jovens, foram entrevistados todos os estudantes do Ensino Médio na única escola que oferta esse nível de ensino do município, sendo a população constituída por 147 jovens. Não foram incluídos os estudantes do turno noturno, e os que não estavam frequentando a escola no momento da entrevista (evasões e abandonos). A idade média deste grupo foi de 15,78 ±1,35, sendo maior a frequência de homens (53,7%). Em relação à religião, 41,5% deles eram católicos e outros 40,8% evangélicos, evidenciando uma mudança de padrão em relação às gerações dos idosos, já que 65% deles afirmou ser católico.

Na amostra de idosos entrevistados, 17,1% tinham alguma união com parentes. Ao serem questionados a respeito do parentesco entre seus genitores, 15,9% dos idosos respondentes afirmaram que seus pais eram consanguíneos. Isso mostra que, de uma geração para outra, houve uma pequena diferença na frequência de uniões

consanguíneas. Esses idosos tiveram em média $5,34 \pm 3,05$ filhos, e $4,92 \pm 2,89$ estavam vivos. De um total de 468 descendentes, 96 (20,5%) eram casados com parentes; evidenciando que há uma tendência de aumento da frequência de casamentos consanguíneos nas gerações: 15,9% na geração dos pais dos idosos, 17,1% na geração dos idosos e 20,5% na geração dos descendentes desses idosos. Além disso, houve maior frequência de casamentos entre primos em primeiro grau ($n=42$ ou 8,6%) entre os genitores dos idosos respondentes do que entre eles ($n=22$ ou 4,3%). Por outro lado, no grupo dos pais dos estudantes, não se observou a mesma frequência de casamentos consanguíneos, pois apenas 10 (6,9%) responderam positivamente. Há que se considerar, neste caso, que muitos jovens não sabiam dizer se seus pais eram aparentados ou não (Tabela 1). Verificou-se que no grupo dos idosos respondentes, 103 (22,1%) deles afirmaram ter algum parente com deficiência enquanto somente quatro estudantes (2,7%) responderam afirmativamente.

Comparação das crenças, atitudes e comportamentos entre gerações

Os idosos e estudantes apresentaram diferenças quanto às crenças, atitudes e comportamentos em relação à consanguinidade. Os jovens mostraram maior rejeição em relação a esse tipo de união (72%) do que os idosos (49,1%), sendo essa diferença significativa ($p=0,00$). Apesar de 258 (50,9%) idosos rejeitarem essa forma de união, 341 (65,3%) deles permitiriam que seus filhos casassem com parentes. Por outro lado, 60 (40,8%) jovens disseram que namorariam ou casariam com primos. Verifica-se, portanto, que há diferença em relação à atitude sobre o casamento consanguíneo entre os grupos ($p=0,00$) (Tabela 2).

Tabela 2 - Resultado de Teste Anova (Kruskal Wallis) para Amostras Independentes comparando crenças, atitudes e valores sobre consanguinidade e deficiência entre jovens e idosos.

Variáveis		N	Idoso	Jovem	p valor
Q1 (Aceita o CC? Vê problema?)	Não	507	249 (49,1%)	106 (72,1%)	0,000*
	Sim	147	258 (50,9%)	41 (27,9%)	
Q2 (Permitira o CC ou namoraria?)	Não	522	181 (34,7%)	87 (59,2%)	0,000*
	Sim	147	341 (65,3%)	60 (40,8%)	

Q3 (Seus pais permitem o CC?)	Não	366	119 (32,5%)	59 (42,4%)	0,037*
	Sim	139	247 (67,5%)	80 (57,6%)	
Q4 (Seus avós permitiam o CC?)	Não	171	51 (29,8%)	58 (42,3%)	0,022*
	Sim	137	120 (70,2%)	79 (57,7%)	
Q5 (CC é mais duradouro?)	Não	495	398 (80,4%)	108 (78,3%)	0,578
	Sim	138	97 (19,6%)	30 (21,7%)	
Q6 (CC tem menos brigas e conflitos?)	Não	495	408 (82,4%)	108 (80,6%)	0,625
	Sim	134	87 (17,6%)	26 (19,4%)	
Q7 (Sua religião permite o CC?)	Não	406	93 (22,9%)	41 (30,6%)	0,074
	Sim	134	313 (77,1%)	93 (69,4%)	
Q8 (Conhece CC com filho deficiente?)	Não	520	265 (51%)	103 (72,5%)	0,000*
	Sim	142	255 (49,0%)	39 (27,5%)	
Q9 (Conhece CNC com filho deficiente?)	Não	522	159 (30,5%)	71 (49,7%)	0,000*
	Sim	143	363 (69,5%)	72 (50,3%)	
Q10 (O risco de CC e NCC é o mesmo para ter filho deficiente?)	Não	480	129 (26,9%)	57 (40,7%)	0,002*
	Sim	140	351 (73,1%)	83 (59,3%)	

Quando perguntado aos entrevistados se os pais deles e avós permitiam o casamento consanguíneo, em ambos os grupos houve uma tendência positiva. No caso dos idosos, 247 (67,5%) dos seus pais e 120 (70,2%) dos avós deles tinham atitude favorável; ao passo que, no caso dos jovens, 80 (57,6%) dos pais e 79 (57,7%) dos avós tinham atitudes positivas. Verificou-se diferença significativa entre os dois grupos ($p=0,037$ para os pais, $p=0,022$ para os avós).

Tanto jovens (108 ou 78,3%) quanto idosos (398 ou 80,4%) acreditam que os casamentos consanguíneos são mais duradouros do que os não-consanguíneos ($p=0,578$). Contudo, em ambos os grupos, 408 (82,4%) de idosos e 108 (80,6%) jovens reconhecem que os cônjuges de casais consanguíneos devem vivenciar conflitos como outros casais ($p=0,625$). Esse mesmo padrão entre os dois grupos também se verificou em relação à influência religiosa, já que 313 (77,1%) idosos e 93 (69,4%) jovens afirmaram que não restringiam o casamento entre parentes, mesmo quando havia diferenças em relação à doutrina (Tabela 2).

Ao serem questionados se conheciam casais consanguíneos e não consanguíneos que tinham filhos com deficiência, houve diferença significativa entre os grupos em relação às duas questões ($p=0,00$). No grupo dos idosos, 255 (49%)

conheciam algum casal consanguíneo nessa condição, contrastando com 39 (27,5%) jovens; ao passo que, 363 (69,5%) idosos e 72 (50,3%) jovens sabiam de algum casal não aparentado com filho com deficiência. Em ambos os grupos, a maioria dos entrevistados não acredita que o risco de nascimento de crianças com deficiência esteja associado à consanguinidade. Apesar de ter mais evidência, 351 (73,1%) dos idosos não estabelecem essa associação em contraste com 83 (59,3%) dos jovens, o que resultou na diferença significativa entre os grupos ($p=0,002$) (Tabela 2).

Como explicado nos métodos, a somatória das respostas positivas para as dez questões do questionário resultou em um valor de score, que podia variar de 1 até 20. A análise de regressão de Poisson com duas variáveis contínuas, idade e score, mostrou correlação significativa entre elas, dando origem a reta mostrada na Figura 1. A tendência mostrada na reta obtida sugere que as pessoas mais jovens estão mais suscetíveis à influência de fatores culturais favoráveis à consanguinidade, como a opinião de seus pais e avós.

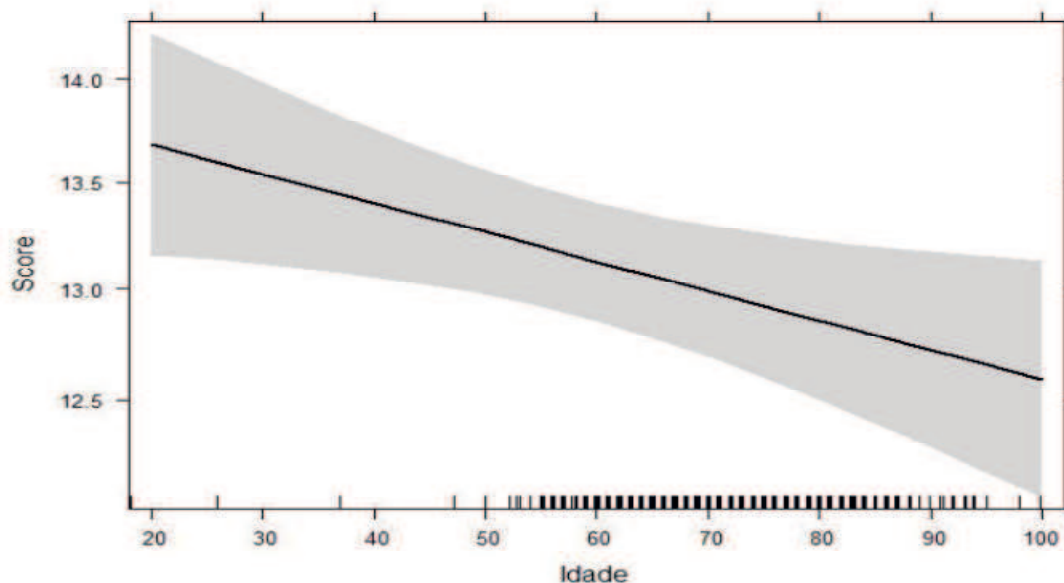


Figura 1: Regressão linear mostrando correlação entre a variável idade e “score”, resultado da somatória da pontuação das dez questões sobre consanguinidade. Quanto maior o valor do “score”, mais positiva é a atitude do participante em relação à consanguinidade.

O score representa a somatória da pontuação de todas as questões, mostrando uma tendência geral. A comparação das médias dos scores por sexo não mostrou diferença significativa ($p = 0,793$), evidenciando que os homens não possuem uma atitude mais positiva em relação à consanguinidade quando comparados às mulheres.

A análise da associação entre as dez variáveis categóricas que compuseram o questionário a fim de se avaliar a relação entre elas foi feita por meio da análise log-linear. Foram excluídas as variáveis Q3 e Q4 devido ao elevado número de casos omissos, que acarretava grande número de casos com frequência menor do que 1%, negando as premissas desse tipo de análise estatística. Além disso, também foram excluídas as variáveis Q5, Q6 e Q7 por não terem associação positiva com o grupo de idosos ou jovens. O modelo então foi construído, portanto, com cinco variáveis (Q1, Q2, Q8, Q9 e Q10). A análise de associação entre essas cinco variáveis produziu seis modelos com combinação de três em três variáveis ou de duas em duas. Os modelos para os quais foi significativo o valor do z-score, fornecendo estimativas individuais de efeito conforme segue: Q1, Q2 e Q10 teve Z score de 3,5 ($p = 0,00$); Q1 e Q2 com Z score de - 4,6 ($p=0,00$) e Q1 e Q8 ($Z = 4,3$ e $p = 0,00$); Q8 e Q9 ($Z = 4,5$ e $p= 0,00$); Q1 e Q10 ($Z= 2,2$ e $p=0,02$).

Comparação entre casais consanguíneos e não-consanguíneos

A análise das respostas de indivíduos incluídos no grupo dos casais consanguíneos mostrou homogeneidade em relação às crenças, atitudes e comportamentos de casais não consanguíneos. De fato, como mostra a Tabela 3, somente uma variável, a crença que uniões consanguíneas são mais duradouras, apresentou diferença significativa entre os dois grupos ($p=0,001$); sendo que os cônjuges de casais consanguíneos têm 2,42 mais chances de acreditar que as uniões entre parentes são mais duradouras (Tabela 3).

Tabela 3 - Comparação das crenças, atitudes e valores no grupo de idosos que se casaram ou não com parentes.

Variáveis		N	Casais não-consanguíneos	Casais consanguíneos	P-valor	OR(95%IC)
Q1 (Aceita o CC? Vê problema?)	Não	489	200 (49,3%)	41 (49,3%)	0,982	0,995 [0,620; 1,595]
	Sim		206 (49,7%)	42 (49,7%)		
Q2 (Permitira o CC ou namoraria?)	Não	505	149 (35,7%)	29 (33%)	0,62	1,131 [0,695; 1,842]
	Sim		268 (64,3%)	59 (67%)		
Q3 (Seus pais permitem o CC?)	Não	352	99 (35,4%)	17 (23,6%)	0,059	1,770 [0,975; 3,213]
	Sim		181 (64,6%)	55 (76,4%)		
Q4 (Seus avós permitiam o CC?)	Não	166	43 (32,3%)	8 (24,2%)	0,367	1,493 [0,622; 3,582]
	Sim		90 (67,7%)	25 (75,8%)		
Q5 (CC é mais duradouro?)	Não	478	329 (86%)	68 (71,6%)	0,001*	2,419 [1,423; 4,113]*
	Sim		54 (14%)	27 (28,4%)		
Q6 (CC tem menos brigas e conflitos?)	Não	477	328 (82,8%)	64 (79%)	0,414	1,281 [0,707; 2,323]
	Sim		68 (17,2%)	17 (21%)		
Q7 (Sua religião permite o CC?)	Não	391	79 (24,4%)	9 (13,4%)	0,051	2,078 [0,985; 4,384]
	Sim		245 (75,6%)	58 (86,6%)		
Q8 (Conhece CC com filho deficiente?)	Não	503	212 (50,8%)	41 (47,7%)	0,593	1,135 [0,713; 1,806]
	Sim		205 (49,2%)	45 (52,3%)		
Q9 (Conhece CNC com filho deficiente?)	Não	504	129 (31%)	26 (29,5%)	0,787	1,072 [0,648; 1,772]
	Sim		287 (69%)	62 (70,5%)		
Q10 (O risco de CC e NCC é o mesmo para ter filho deficiente?)	Não	462	107 (28%)	17 (21,3%)	0,215	1,442 [0,807; 2,576]
	Sim		275 (72%)	63 (78,8%)		

DISCUSSÃO

Na população de idosos Brejo dos Santos, foi estimada a frequência de casamentos consanguíneos da ordem de 17,1%, não sendo observada diferença significativa em relação à porcentagem estimada para a população do município (19,48%) (WELLER *et al.*, 2012). Em relação às diferenças de prevalência de uniões consanguíneas ao longo das gerações, foi estimado os valores passaram de 15,9% na geração dos pais dos idosos para 17,1% na geração dos idosos e 20,5% na geração dos descendentes desses idosos, ou seja, as gerações mais novas são mais consanguíneas. Em um estudo feito em cinco municípios do Rio Grande do Norte, observou-se maior proporção de casais consanguíneos entre a faixa etária de 20-49 anos em relação aos casais não aparentados; evidenciando a valorização da tradição de casamentos consanguíneos entre jovens adultos (SANTOS *et al.*, 2013b; LOPES *et al.*, 2017).

Essa tendência a conservação de práticas de consanguinidade contrasta com um fenômeno mundial de redução significativa dessa tradição (BITTLES, 2012; SMALL *et al.*, 2016). No século XX, observou-se redução acentuada da consanguinidade nos países mais industrializados da Europa Ocidental, América do Norte e no Japão. Entretanto, em alguns países do Oriente Médio, há padrões contraditórios e, em algumas comunidades, as taxas atuais de uniões consanguíneas parecem exceder aqueles da geração anterior (BITTLES, 2008; WARSY *et al.*, 2014) ou nas comunidades paquistanesas que vivem em outros países (GRJIBOVSKI *et al.*, 2009).

A comunidade de Brejo dos Santos, no semiárido nordestino, é composta majoritariamente por idosos com pouca ou nenhuma escolaridade que vivem em áreas predominantemente rurais. Na sua totalidade, são agricultores e criadores de animais para subsistência (LOPES *et al.*, 2017). Na literatura já é relativamente consensual que há maior prevalência de uniões consanguíneas em comunidades rurais, com estilo de vida mais tradicional, baixo índice de desenvolvimento humano e socioeconômico, reduzido nível de educação materna, e onde os casamentos ocorrem mais precocemente (BITTLES and BLACK, 2010; BHOPAL *et al.*, 2013). Além disso,

verificou-se também maior fecundidade dentre os casais consanguíneos no mundo e no nordeste brasileiro; e uma forte correlação foi verificada entre a consanguinidade de descendentes do sexo feminino e a dos seus pais (BITTLES, 2008; WARSY *et al.*, 2014).

Em Brejo dos Santos, verificamos diferença em relação às crenças e atitudes sobre o casamento consanguíneo entre os grupos de idosos e jovens. Das dez variáveis analisadas, apenas três delas não mostram diferença significativa entre esses grupos na análise do tipo ANOVA. Cerca de 70% dos jovens rejeitam as uniões consanguíneas, embora 60% dos seus pais e avós sejam permissivos em relação a esse tipo de união e 40% deles tenha admitido estar disposto a namorar ou até casar-se com seus primos, não sendo observada qualquer tipo de restrição religiosa. Assim como os idosos, cerca de 80% dos jovens não acreditam que os casamentos entre parentes sejam mais duradouros ou menos conflituosos.

Essa visão contrasta com os dados existentes na literatura, os quais apontam que entre casais consanguíneos o divórcio é mais raro e há mais confiança no relacionamento conjugal, sendo que os cônjuges têm concepções e condições econômicas semelhantes para lidar com os problemas cotidianos. Esses achados têm ressaltado os benefícios dos casamentos consanguíneos que são resilientes às pressões da vida conjugal (BITTLES and BLACK, 2010; BHOPAL *et al.*, 2013).

No nosso estudo, não foi verificada diferença significativa em relação às atitudes para casamentos consanguíneos em relação ao sexo do entrevistado. Esse dado contrasta com um estudo envolvendo 386 adultos sauditas, no qual as mulheres tiveram significativamente mais conhecimento sobre as consequências de casamentos consanguíneos em relação aos homens, mostrando uma atitude menos positiva (ALHARBI *et al.*, 2015). Outro estudo mostrou que mulheres casadas com primos têm atitude ou comportamento positivo em favor da consanguinidade em comparação com mulheres que não são casadas com parentes. Em relação às razões para casar-se com parente, as mulheres afirmaram que "amor" foi o principal (63,3%) motivo, seguido de pressão familiar (14,7%). Para tomada de decisão reprodutiva, a família foi a principal fator motivacional em praticamente metade dos casos. A maior vantagem percebida de uma união consanguínea foi o fato das famílias se

conhecerem por longo período de tempo e a principal desvantagem foi a possibilidade de ter filhos com deficiência (ÇIÇEKLIOĞLU et al., 2012).

Em relação à influência da religião, cerca de 65% dos idosos de Brejo dos Santos são católicos e somente 41% dos jovens. Verificou-se um aumento da frequência de evangélicos e protestantes na população, já que cerca de 40% dos jovens são seguidores dessas doutrinas e 30% dos idosos são seguidores dessas doutrinas. Apesar disso, em ambos os grupos os participantes declararam que não havia qualquer tipo de restrição aos casamentos consanguíneos nas suas religiões. Essas opiniões contrastam com algumas recomendações do catolicismo que claramente restringem esse tipo de união. Nos países muçulmanos do Oriente Médio, por outro lado, não há qualquer tipo de limitação às uniões consanguíneas (BITTLES, 2010).

A investigação das evidências utilizadas pela população idosa e de jovens de Brejos dos Santos foi realizada por meio do levantamento do conhecimento e vivências de pessoas com deficiência. Metade dos idosos conhece algum casal consanguíneo com prole deficiente e isto se eleva para cerca de 70% para casais não consanguíneos. No caso dos jovens, essas porcentagens são bem menores, sendo da ordem de 27% e 50%, respectivamente. A maioria dos idosos (73%) e dos jovens (59%) acredita que casais consanguíneos e não consanguíneos têm o mesmo risco de terem filhos com alguma doença genética. Embora os idosos tenham mais evidência da relação entre consanguinidade e deficiência, eles ignoram em maior proporção essa associação.

Esses dados também evidenciam que há uma rejeição dessa ideia de risco, que não se distribui de forma aleatória na população (os valores observados são diferentes de 50%). Em outras comunidades do nordeste brasileiro, as famílias nas quais segregam doenças de herança recessiva também rejeitam essa associação (SANTOS, S., and BIZZO, N. 2005). Na literatura, verificou-se que o nível de conhecimento sobre risco tende a aumentar para os entrevistados que receberam o conselho de seus amigos ou possuíam um diploma universitário. (AHMED, 2005)

O grupo dos idosos foi subdividido entre aqueles que tinham uma união consanguínea e os que não tinham nenhum grau de parentesco a fim de comparar as

crenças, atitudes e comportamento reprodutivo entre eles. Surpreendentemente, em relação às dez variáveis investigadas, não foram observadas diferenças significativas entre os grupos para nove delas; o que demonstra grande homogeneidade e atitude bastante positiva em relação à consanguinidade. A única diferença observada entre os dois grupos diz respeito à afirmação de que os casamentos consanguíneos são mais duradouros. Os casais consanguíneos tinham 2,4 vezes mais chance de responder positivamente em relação ao outro grupo. Apesar de no grupo consanguíneo ter mais parentes afetados por doenças genéticas, isto não se traduziu em diferença em relação à questão sobre evidências e vivência com fenômeno hereditário.

Nossos resultados contrastam com outros estudos da literatura. Um estudo feito no Paquistão, por exemplo, por meio de questionário aplicado para 1.500 indivíduos de ambos os sexos, mostrou que os cônjuges aparentados tiveram atitude mais positiva em relação à consanguinidade do que os não consanguíneos (PERVAIZ *et al.*, 2018). Se os cônjuges têm pais consanguíneos, a atitude deles tende a ser mais positiva (ALHARBI *et al.*, 2015; PERVAIZ *et al.*, 2018). A atitude positiva foi significativamente menor entre entrevistados que receberam conselhos de saúde sobre os riscos de casamentos consanguíneos na prole do que aqueles que não receberam nenhum conselho de saúde sobre casamentos consanguíneos (PERVAIZ *et al.*, 2018). Além disso, os entrevistados que receberam informações de saúde de uma fonte de mídia social tiveram atitude significativamente menos positiva em relação a consanguinidade do que aqueles que não as receberam. Contudo, renda familiar, nível de educação, status ocupacional, idade, estado civil e história positiva de doença na família não tiveram associação significativa com atitude positiva para consanguinidade (PERVAIZ *et al.*, 2018).

Em um estudo feito em duas comunidades da Índia, envolvendo 178 respondentes, verificou-se que o histórico familiar de consanguinidade mostrou associação significativa com atitude positiva para esse tipo de união (JOSEPH *et al.*, 2014). Na população saudita, foi estudada a prevalência de consanguinidade em mulheres com elevado grau de instrução e os resultados foram comparados com os obtidos em seus pais. A consanguinidade total entre os pais das 600 participantes foi de 29,7% e das suas filhas (n=293) 37,9% eram casadas com parentes. A prevalência de consanguinidade entre as mulheres participantes casadas foi significativamente

maior do que entre os pais da amostra total, evidenciando uma preferência por esse tipo de casamento entre as filhas de casais consanguíneos (BITTLES, 2008; WARSY *et al.*, 2014).

Nos grupos de casais consanguíneos de Brejo dos Santos, a grande maioria (79%) deles não associa a consanguinidade ao risco de nascimento de crianças com doenças genéticas. Eles acreditam que os riscos são os mesmos para casais consanguíneos e não consanguíneos, afirmando que ocorrem crianças com deficiência em ambos os casos. Na Índia, verificou-se em um estudo com 178 respondentes, que cerca de 80% deles também não associavam consanguinidade às doenças genéticas. A maior parte dos participantes não demonstrou compreender minimamente os problemas associados à consanguinidade (JOSEPH *et al.*, 2014).

Neste primeiro estudo de base populacional feito no Nordeste do Brasil, o conjunto de dados obtidos corrobora o argumento de que a tomada de decisão reprodutiva de casar-se ou não com parentes não se baseia na probabilidade ou risco de nascimento de crianças com doenças genéticas. A atitude positiva em relação à consanguinidade está associada à crença de que os casamentos entre pessoas aparentadas são mais duradouros.

REFERÊNCIAS

- Alharbi, O.A., AlShaia, W. A., Al-Hamam, A. A., Al-Marzoug, H.M., Ahmed, A. E. and Bagha, M.** (2015). Attitude of Saudi Arabian adults towards consanguineous marriage. *Qatar Medical Journal*, **12** (2): 1-8 doi: 10.5339/qmj.2015.12.eCollection2015.
- Alnaqeb, D., Hamamy, H., Youssef, A. M. and Al-Rubeaan, K.** (2016). Assessment of knowledge, attitude and practice towards consanguineous marriages among a cohort of multiethnic health care providers in Saudi Arabia. *Journal of Biosocial Science* **50**, 1–18. doi: 10.1017/s0021932016000675.
- Ahmed AE, Alharbi OA, Al-Hamam AA, Al-Shaia WA, Al-Marzoug HM, Bagha M.** (2016). Awareness of Health Consequences of Consanguineous Marriages among Saudi Adults. *Journal of Public Health in Developing Countries*, 2 (1):121-129.
- Alves, L. U., Santos, S., Musso, C. M., Ezquina, S. A. M., Opitz, J. M., Kok, F., Otto, P. A. and Mingroni-Netto, R. C.** (2017). Santos syndrome is caused by mutation in the *WNT7A* gene. *Journal of Human Genetics* **62**, 1073. doi: 10.1038/jhg.2017.86.
- Aragon, T.** (2008). Epitools: epidemiology tools. *R package version 0. 5-2*, URL <http://www.medepi.com>.
- Bhopal, R. S., Petherick, E. S., Wright, J. and Small, N.** (2013). Potential social, economic and general health benefits of consanguineous marriage: results from the Born in Bradford cohort study. *European Journal of Public Health* **24**, 862–869. doi: 10.1093/eurpub/ckt166.
- Bittles, A. H.** (2008). A community genetics perspective on consanguineous marriage. *Community Genetics* **11**, 324–330. doi: 10.1159/000133304.
- Bittles, A. H.** (2012). Consanguinity and reproductive behaviour. In *Consanguinity in Context*, pp. 93–111. doi: 10.1017/cbo9781139015844.007.

Bittles, A. H. and Black, M. L. (2010). Consanguineous Marriage and Human Evolution. *Annual Review of Anthropology* **39**, 193–207. doi: 10.1146/annurev.anthro.012809.105051.

Çiçeklioğlu, M., Ergin, I., Demirelöz, M., Ceber, E. and Nazlı, A. (2012). Sociodemographic aspects of consanguineous marriage in an urban slum of a metropolitan area in İzmir, Turkey. *Annals of Human Biology* **40**, 139–145. doi: 10.3109/03014460.2012.749945.

Castilla, E. and Schuler-Faccini, L. (2014). From rumors to genetic isolates. *Genetics and Molecular Biology* **37**, 186–193. doi: 10.1590/S1415-47572014000200005.

DAWKINS, RICHARD. O gene egoísta. Editora Companhia das Letras, 1976.

EMERSON, Ralph Waldo. Natureza-A Bíblia do Naturalista. Editora Dracaena, 2015.

Figueiredo, T., Melo, U. S., Pessoa, A. L. S., Nobrega, P. R., Kitajima, J. P., Correa, I., Zatz, M., Kok, F. and Santos, S. (2015). Homozygous missense mutation in MED25 segregates with syndromic intellectual disability in a large consanguineous family. *Journal of Medical Genetics* **52**, 123–127. doi: 10.1136/jmedgenet-2014-102793.

Figueiredo, T., Melo, U. S., Pessoa, A. L. S., Nobrega, P. R., Kitajima, J. P., Rusch, H., Vaz, F., Lucato, L. T., Zatz, M., Kok, F. and Santos, S. (2016). A homozygous loss-of-function mutation in inositol monophosphatase 1 (IMPA1) causes severe intellectual disability. *Molecular Psychiatry* **21**, 1125–1129. doi: 10.1038/mp.2015.150.

Freire-Maia, N. (1957). Inbreeding in Brazil. *American Journal of Human Genetics* **9**, 284–298.

Grijbovski, A. M., Magnus, P. and Stoltenberg, C. (2009). Decrease in consanguinity among parents of children born in Norway to women of Pakistani origin: a registry-based study. *Scandinavian Journal of Public Health* **37**, 232–238. doi: 10.1177/1403494808100939.

Harkness, G. and Khaled, R. (2014). Modern Traditionalism: Consanguineous Marriage in Qatar. *Journal of Marriage and Family Counseling* **76**, 587–603. doi: 10.1111/jomf.12106.

Hussain, R. (2002). Lay perceptions of genetic risks attributable to inbreeding in Pakistan. *American Journal of Human Biology*, **14**, 264–274. doi: 10.1002/ajhb.10034.

Joseph, N., Keshava Pavan, K., Ganapathi, K., Apoorva, P., Sharma, P. and Jhamb, J. A. (2014). Health Awareness and Consequences of Consanguineous Marriages. *Journal of Primary Care & Community Health* **6**, 121–127. doi: 10.1177/2150131914557496.

Kahneman, D. (2011). *Thinking, Fast and Slow*. Farrar, Straus and Giroux, New York.

Lopes, F. R. L., Monteiro, K. S., Figueiredo, T., da Costa Wanderley, T., de Almeida Pequeno, T., Lima, S. and Santos, S. (2017). Reliability of information on people with disabilities gathered by community health workers in highly consanguineous communities of Northeastern Brazil. *BMC Health Services Research* **17**, 317-326 doi: 10.1186/s12913-017-2267-3.

Macedo-Souza, L. I., Kok, F., Santos, S., Amorim, S. C., Starling, A., Nishimura, A., Lezirovitz, K., Lino, A. M. M. and Zatz, M. (2005). Spastic paraplegia, optic atrophy, and neuropathy is linked to chromosome 11q13. *Annals of Neurology* **57**, 730–737. doi: 10.1002/ana.20478.

Mazharul Islam, M. (2017) Consanguineous marriage in Oman: understanding the community awareness about congenital effects of and attitude towards consanguineous marriage, *Annals of Human Biology*, **44**:3,273-286. doi: 10.1080/03014460.2016.1224385

Melo, U. S., Santos, S., Cavalcanti, H. G., Andrade, W. T., Dantas, V. G., Rosa, M. R. and Mingroni-Netto, R. C. (2014). Strategies for genetic study of hearing loss in the Brazilian northeastern region. *International Journal of Molecular Epidemiology and Genetics* **5**, 11–21.

Melo, U. S., Macedo-Souza, L. I., Figueiredo, T., Muotri, A. R., Gleeson, J. G., Coux, G., Armas, P., Calcaterra, N. B., Kitajima, J. P., Amorim, S., Olávio, T. R., Griesi-Oliveira, K., Coatti, G. C., Rocha, C. R. R., Martins-Pinheiro, M., Menck, C. F. M., Zaki, M. S., Kok, F., Zatz, M. and Santos, S. (2015). Overexpression of KLC2 due to a homozygous deletion in the non-coding region causes SPOAN syndrome. *Human Molecular Genetics* **24**, 6877–6885. doi: 10.1093/hmg/ddv388.

Neri, M., Pinto, A., Soares, W., Costilla, H. (2003). *Retratos da deficiência no Brasil*. Fundação Getulio Vargas/Instituto Brasileiro de Economia - Centro de Políticas Sociais, Rio de Janeiro.

Passos-Bueno, M. R., Bertola, D., Horovitz, D. D. G., de Faria Ferraz, V. E. and Brito, L. A. (2014). Genetics and genomics in Brazil: a promising future. *Molecular Genetics & Genomic Medicine* **2**, 280–291. doi: 10.1002/mgg3.95.

Pervaiz, R., Faisal, F. and Serakinci, N. (2018). Practice of consanguinity and attitudes towards risk in the Pashtun population of Khyber Pakhtunkhwa, Pakistan. *Journal of Biosocial Science* **50**, 414–420. doi: 10.1017/S0021932017000189.

Sandridge, A. L., Takeddin, J., Al-Kaabi, E. and Frances, Y. (2009). Consanguinity in Qatar: knowledge, attitude and practice in a population born between 1946 and 1991. *Journal of Biosocial Science* **42**, 59. doi: 10.1017/s002193200999023x.

Santos, S. (2006). The diversity of everyday ideas about inherited disorders. *Public Understanding of Science* **15**, 259–275. doi: 10.1177/0963662506059258.

Santos, S. and Bizzo, N. (2005). From “new genetics” to everyday knowledge: Ideas about how genetic diseases are transmitted in two large Brazilian families. *Science Education* **89**, 564–576. doi: 10.1002/sce.20062.

Santos, S. C., Pardono, E., Ferreira da Costa, M. I., de Melo, A. N., Graciani, Z., de Albuquerque e Souza, A. C., Lezirovitz, K., Thiele-Aguiar, R. S., Mingroni-Netto, R. C., Opitz, J. M., Kok, F. and Otto, P. A. (2008). A previously undescribed syndrome combining fibular agenesis/hypoplasia, oligodactylous clubfeet, anonychia/ungual hypoplasia, and other defects. *American Journal of Medical Genetics. Part A* **146A**, 3126–3131. doi: 10.1002/ajmg.a.32580.

Santos, S., da Silva Pequeno, A. A., Pessoa, A., Galvão, C. R. C., de Medeiros, J. L. A., Mathias, W. and Kok, F. (2013a). Increased prevalence of inherited neuromuscular disorders due to endogamy in Northeast Brazil: the need of community genetics services. *Journal of Community Genetics*. doi: 10.1007/s12687-013-0174-9.

Santos, S., Melo, U. S., Lopes, S. S. dos S., Weller, M. and Kok, F. (2013b). Could endogamy explain the higher prevalence of disabilities in the population of the Brazilian Northeast? *Ciencia & Saúde Coletiva* **18**, 1141–1150.

Santos, S., Pequeno, A. A. da S., Galvão, C. R. C., Pessoa, A. L. S., Almeida, E. D. S., Pereira, J. C., Medeiros, J. L. A. de and Kok, F. (2014). The causes of physical disability in municipalities of the northeast of Brazil and an estimate of costs of specialized services. *Ciencia & Saude Coletiva* **19**, 559–568.

Small, N., Bittles, A. H., Petherick, E. S. and Wright, J. (2016). Endogamy, consanguinity and health implications of changing marital choices in the UK Pakistani Community. *Journal of Biosocial Science* **49**, 435–446. doi: 10.1017/s0021932016000419.

Team, R. C. and Others (2013). R: A language and environment for statistical computing. R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria.

Warsy, A. S., Al-Jaser, M. H., Albdass, A., Al-Daihan, S. and Alanazi, M. (2014). Is consanguinity prevalence decreasing in Saudis?: A study in two generations. *African Health Sciences* **14**, 314. doi: 10.4314/ahs.v14i2.5.

Weller, M. and Santos, S. (2013). A positive association between consanguinity and fertility in communities of Paraíba, Northeast Brazil. *Annals of Human Biology* **40**, 527–530. doi: 10.3109/03014460.2013.815271.

Weller, M., Tanieri, M., Pereira, J. C., Almeida, E. D. S., Kok, F. and Santos, S. (2012). Consanguineous unions and the burden of disability: a population-based study in communities of Northeastern Brazil. *American journal of Human Biology* **24**, 835–840. doi: 10.1002/ajhb.22328.

4 CONSIDERAÇÕES FINAIS

Este é o primeiro estudo realizado no Brasil de base populacional que investigou as relações entre crenças, atitudes e comportamento sobre consanguinidade. A análise de toda a população de jovens que frequentam a

educação formal e idosos com 60 anos ou mais evidenciou que não há, como seria esperado, uma redução na prevalência de casamentos consanguíneos nas gerações. Além disso, o estudo também mostrou claramente que os jovens tendem a ser mais suscetíveis as crenças das gerações de seus pais e avós, tendo uma atitude positiva para os casamentos consanguíneos.

Estes resultados devem ser considerados para definição de políticas públicas e para educação formal das populações da região nordeste que mantém comportamento reprodutivo semelhante ao da população de Brejo dos Santos. Os jovens mostram uma atitude bastante positiva para esse tipo de união, o que pode contribuir para o nascimento de crianças com doenças genéticas no futuro.

Diferente do que seria esperado, os casais consanguíneos e não-consanguíneos possuem grande similaridade nas suas percepções e atitudes em relação à consanguinidade. Os resultados do trabalho mostraram claramente que o principal fator que motiva as pessoas a casarem-se com parentes é a crença de que o casamento é mais duradouro. Este achado corrobora outros estudos realizados com outras populações consanguíneas, especialmente no Oriente Médio.

Outro achado bastante relevante diz respeito ao fato de que a população não vê relação entre casamentos consanguíneos e maior risco de nascimento de crianças com doenças genéticas. De fato, elas desconsideram o conceito de risco, como algumas pesquisas da área da Psicologia Cognitiva tem mostrado. Este achado reforça a necessidade de reflexão a respeito dos procedimentos utilizados em serviços de aconselhamento genético, que se baseiam basicamente na informação sobre riscos para tomada de decisão reprodutiva. Esses achados e as proposições da área da Psicologia Cognitiva devem ser utilizados para educação em Saúde. Mais do que nunca, é necessário compreender o contexto cultural e entender como as pessoas tomam decisões em sua vida cotidiana.

As ideias que são culturalmente transmitidas influenciam o comportamento, assim como as ideias transmitidas pela escola e pela mídia. Richard Dawkins, por exemplo, no seu livro *O gene Egoísta*, em 1976, criou o conceito de meme como uma unidade de evolução cultural que pode se autopropagar em diferentes formas, seja por ideias, línguas, sons, desenhos, capacidades, valores estéticos ou qualquer outra coisa que possa ser aprendida facilmente e transmitida como unidade autônoma.

Precisamos compreender como os memes, que são unidades de informação, articulam-se com os comportamentos e com a tomada de decisão.

Há que se considerar também a melhor compreensão das teorias de mudança de comportamento e como elas podem fundamentar ações de educação em saúde para essas populações consanguíneas. Como vimos, não é suficiente explicar que a consanguinidade aumenta o risco de nascimento de crianças com doenças genéticas para que as pessoas possam tomar consciência de seu risco e evitar esse tipo de união. Há, de fato, uma valorização nas comunidades do sertão desse tipo de casamento principalmente pela crença de que ele é melhor e mais duradouro.

Em trabalhos futuros, seria importante replicar o estudo feito em Brejo dos Santos em outras comunidades que possuam mais ou menos prevalência de casamentos consanguíneos a fim de se construir evidência de que as uniões consanguíneas ocorrem em comunidade que acreditam ser esse tipo de casamento mais duradouro. Será que essa crença também existe em comunidades não-consanguíneas? Por que em algumas comunidades esse tipo de união é valorizada enquanto em outras isso não acontece? Que tipo de influência cultural deu origem a esses memes? Como esses memes mudam ao longo do tempo?

Outro aspecto interessante seria o delineamento de intervenções baseadas em teorias de mudança de comportamento, utilizando formatos como os estudos clínicos randomizados ou estudos longitudinais prospectivos. Compreender a relação entre crença, atitude e comportamento hoje é fundamental para promoção da saúde em nível populacional.

APÊNDICES

APÊNDICE I: FICHA DE COLETA - IDOSOS

1.MICROÁREA:	2.ACS:	3.CÓDIGO:
4.Nome do idoso:		
5.Idade:	6.Sexo:	7.Religião:
8.Nome do(a) esposo(a):		
9.Idade do esposo (a):	10.Sexo:	11.Religião:
12. Esposo(a) é parente? <input type="checkbox"/> 0 - Não <input type="checkbox"/> 1 - Sim	13. Qual é o parentesco? <input type="checkbox"/> A - Tio (a) / Sobrinho (a) <input type="checkbox"/> B - Primos carnais/duplos (pais são dois irmãos com duas irmãs) <input type="checkbox"/> C - Primos/1º Grau (os pais são filhos de dois irmãos) <input type="checkbox"/> D - Primos de 2º Grau (pai de um é irmão do avô do outro) <input type="checkbox"/> E - Primos de 3º Grau (avós do casal são irmãos) <input type="checkbox"/> F – Primos distantes ou não sabe descrever o parentesco	
14. PRIMO EM PRIMEIRO GRAU (C)	<input type="checkbox"/> C1 – os pais do casal são ambos homens (dois irmãos) <input type="checkbox"/> C2 – os pais do casal tem mesmo sexo de seus filhos <input type="checkbox"/> C3 – os pais e os cônjuges têm sexos distintos <input type="checkbox"/> C4 – Os pais do casal são ambas mulheres (duas irmãs)	
Nomes completos dos filhos (se falecidos, anotar idade e causa)		
1	DEF?	CASADO ?
2		
3		
4		
5		
6		
7		
8		
9		
10		
GENEALOGIA DO IDOSO (SE FALECIDO, ANOTAR IDADE DE FALECIMENTO E CAUSA)		
1 PAI:	DEF?	PARENT E?
2 MÃE:		
3 AVÔ PATERNO		
4 AVÔ PATERNA		
5 AVÔ MATERNO		
6 AVÔ PATERNA		

GENEALOGIA DO(A) ESPOSO(A) DO IDOSO		DEF?	PARENT E?
1 PAI:			
2 MÃE:			
3 AVÔ PATERNO			
4 AVÔ PATERNA			
5 AVÔ MATERNO			
6 AVÔ PATERNA			
CONCEPÇÕES SOBRE CONSANGUINIDADE DO IDOSO E SEU ESPOSO (A)		IDOSO	ESPOSO
1 Vê algum problema em namoro ou casamento entre primos?			
2 O senhor permite que seus filhos namorem ou casem com primos?			
3 Seus pais permitiam namoro ou casamento entre primos?			
4 Seus avôs permitiam namoro ou casamento entre primos?			
5 O casamento entre pessoas da mesma família é melhor e dá mais certo?			
6 No casamento de primos têm menos brigas e desentendimentos?			
7 A sua religião permite casamento entre primos?			
8 Conhece algum casal de primo com filho com deficiência?			
9 Conhece algum casal não aparentado com filho com deficiência?			
10 Acha que casais aparentados e não aparentados têm mesmo risco de ter filhos com problema ou com alguma deficiência?			
SCORE RELATIVO AS CRENÇAS (DE 0 ATÉ 10 – CADA SIM VALE 1)			

APÊNDICE II: FICHA DE COLETA ESTUDANTES

1.MICROÁREA:	2.ACS:	3.CÓDIGO:
4.Nome do estudante:		
5.Idade:	6.Sexo: ()F ()M	7.Religião:
8.Nome do seu pai:		
9.Idade do pai:	10.Falecido? ()Não ()Sim	Causa:
11.Nome da sua mãe:		
12.Idade da mãe:	13.Falecida? ()Não ()Sim	Causa:
14. Seu pai e sua mãe são primos? ()0 - Não ()1 - Sim	15. Caso seus pais sejam primos, qual é o parentesco deles? ()A - Tio (a) / Sobrinho (a) ()B - Primos carnais (dois irmãos casados com duas irmãs) ()C – Primos de 1º Grau (seus pais são filhos de dois irmãos) ()D - Primos de 2º Grau (um de seus pais é irmão de um dos seus avós) ()E - Primos de 3º Grau (os avós de seus pais são irmãos) ()F – Primos distantes ou não sabe descrever o parentesco.	
16. Se seus pais são primos em primeiro grau	()C1 - você tem dois avós que são irmãos e ambos são homens. ()C2 – os seus avós que são irmãos tem mesmo sexo dos seus pais (seu avô e pai são homens; ou sua avó e mãe são mulheres) ()C3 – os seus avós que são irmãos têm sexo diferente dos seus pais (seu avô, homem, é pai da sua mãe; ou sua avó é mãe do seu pai). ()C4 – você tem duas avós que são irmãs e ambas são mulheres.	
17. Nomes completos dos seus irmãos e irmãs em ordem decrescente		
	IDADE	TEM DEFICIÊNCIA?
1		
2		
3		
4		
5		
6		
7		
8		
9		
10		
GENEALOGIA DO ESTUDANTE – AVÓS PATERNOS E MATERNOS		
18.Nome do seu avô paterno:		
19.Idade:	20.Falecido? ()Não ()Sim	Causa:
21.Nome da sua avó paterna:		

22.Idade:	23.Falecido? ()Não ()Sim	Causa:																																				
24.Nome do seu avô materno:																																						
25.Idade:	26.Falecido? ()Não ()Sim	Causa:																																				
27.Nome da sua avó materna:																																						
28.Idade:	29.Falecido? ()Não ()Sim	Causa:																																				
<table border="1"> <thead> <tr> <th>IDEIAS SOBRE CONSANGUINIDADE - VOCÊ CONCORDA COM AS SEGUINTES AFIRMAÇÕES?</th> <th>SIM</th> <th>NÃO</th> </tr> </thead> <tbody> <tr> <td>1 Você vê algum problema em namoro ou casamento entre primos?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>2 Você já namorou ou namoraria no futuro com um primo?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>3 Seus pais permitem namoro ou casamento entre primos?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>4 Seus avós permitem o namoro ou casamento entre primos?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>5 O casamento entre pessoas da mesma família é melhor e dá mais certo?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>6 No casamento de primos têm menos brigas e desentendimentos?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>7 A sua religião permite casamento entre primos?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>8 Conhece algum casal de primo com filho com deficiência?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>9 Conhece algum casal não aparentado com filho com deficiência?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>10 Acha que casais aparentados e não aparentados têm mesmo risco de ter filhos com problema ou com alguma deficiência?</td> <td></td> <td></td> </tr> <tr> <td>SCORE</td> <td></td> <td></td> </tr> </tbody> </table>			IDEIAS SOBRE CONSANGUINIDADE - VOCÊ CONCORDA COM AS SEGUINTES AFIRMAÇÕES?	SIM	NÃO	1 Você vê algum problema em namoro ou casamento entre primos?			2 Você já namorou ou namoraria no futuro com um primo?			3 Seus pais permitem namoro ou casamento entre primos?			4 Seus avós permitem o namoro ou casamento entre primos?			5 O casamento entre pessoas da mesma família é melhor e dá mais certo?			6 No casamento de primos têm menos brigas e desentendimentos?			7 A sua religião permite casamento entre primos?			8 Conhece algum casal de primo com filho com deficiência?			9 Conhece algum casal não aparentado com filho com deficiência?			10 Acha que casais aparentados e não aparentados têm mesmo risco de ter filhos com problema ou com alguma deficiência?			SCORE		
IDEIAS SOBRE CONSANGUINIDADE - VOCÊ CONCORDA COM AS SEGUINTES AFIRMAÇÕES?	SIM	NÃO																																				
1 Você vê algum problema em namoro ou casamento entre primos?																																						
2 Você já namorou ou namoraria no futuro com um primo?																																						
3 Seus pais permitem namoro ou casamento entre primos?																																						
4 Seus avós permitem o namoro ou casamento entre primos?																																						
5 O casamento entre pessoas da mesma família é melhor e dá mais certo?																																						
6 No casamento de primos têm menos brigas e desentendimentos?																																						
7 A sua religião permite casamento entre primos?																																						
8 Conhece algum casal de primo com filho com deficiência?																																						
9 Conhece algum casal não aparentado com filho com deficiência?																																						
10 Acha que casais aparentados e não aparentados têm mesmo risco de ter filhos com problema ou com alguma deficiência?																																						
SCORE																																						

ANEXOS

ANEXO I: Comprovação de publicação de artigo em periódico (Qualis A1).

Lopes et al. *BMC Health Services Research* (2017) 17:317
 DOI 10.1186/s12913-017-2267-3

BMC Health Services Research

RESEARCH ARTICLE

Open Access



Reliability of information on people with disabilities gathered by community health workers in highly consanguineous communities of Northeastern Brazil

Fernando Rocha Lucena Lopes¹, Karolinne Souza Monteiro¹, Thalita Figueiredo^{1,2}, Thyago da Costa Wanderley¹, Thiago de Almeida Pequeno³, Shirley Lima¹ and Sílvia Santos^{1,2,3,4*}

Abstract

Background: In Brazil, community health workers have gathered monthly information on people with disabilities to maintain the Primary Care Information System since 1998, however, few studies have used this database for scientific or public health policy purposes.

Objectives: This study aimed to evaluate the reliability of information on people with disabilities gathered by community health workers in primary care services.

Method: This was a cross-sectional population-based study conducted in two highly consanguineous communities, involving a population of 18,458 inhabitants in Northeastern Brazil. To study the prevalence of people with disabilities, estimations performed by health workers were compared with those obtained by researchers who interviewed 15.6% of the total population. To study the agreement of the information, data on 106 people with disabilities completed independently by researchers and health workers were compared to evaluate the degree of agreement for 28 variables analysed. Kappa statistics (κ) were used to calculate the inter-rater agreement.

Results: The prevalence of disability estimated by community health workers was 3.01 and 2.00% for city A and B, respectively, while the percentages obtained by researchers were 6.72 and 5.65%, respectively, showing an underestimation of prevalence according to community health workers. The Kappa index value obtained for all data analysed (2,589 items excluding losses) was 0.808 ($p < 0.01$), indicating an almost perfect consistency of information collected by health workers compared to by researchers.

Conclusion: Community health workers collected information with a high degree of reliability, although the identification of the prevalence of disabled individuals was potentially impaired due to the work process.


Keywords: Epidemiology, Community health worker, Reproducibility of results, Information systems, Primary health care


ANEXO II - Parecer do Comitê de Ética em Pesquisas com Seres Humanos da Universidade Estadual da Paraíba. Este projeto é um recorte do projeto maior aprovado no Comitê.

- DADOS DA VERSÃO DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: ESTUDO SABE-PB: INVESTIGAÇÃO DA SITUAÇÃO DE SAÚDE, BEM ESTAR E ENVELHECIMENTO EM POPULAÇÕES CONSANGÜÍNEAS NO NORDESTE BRASILEIRO
Pesquisador Responsável: Silvana Cristina dos Santos
Área Temática: Genética Humana;
(Trata-se de pesquisa envolvendo Genética Humana que não necessita de análise ética por parte da CONEP.)

Versão: 1
CAAE: 67426017.6.0000.5187
Submetido em: 20/04/2017
Instituição Proponente: Universidade Estadual da Paraíba - UEPB
Situação da Versão do Projeto: Aprovado
Localização atual da Versão do Projeto: Pesquisador Responsável
Patrocinador Principal: Capes Coordenação Aperf Pessoal Nível Superior



Comprovante de Recepção:  PB_COMPROVANTE_RECEPCAO_906479