

Prevalência da perturbação do espectro do autismo na região Centro de Portugal: um estudo no âmbito do projeto ASDEU

Prevalence study of autism spectrum disorder in the região Centro of Portugal: the ASDEU project

Célia Rasga ^(1,2), João Xavier Santos ^(1,2), Cátia Café ⁽³⁾, Alexandra Oliveira ⁽³⁾, Frederico Duque ⁽³⁻⁶⁾, Ana Nunes ⁽²⁾, Guiomar Oliveira ⁽³⁻⁵⁾, Astrid Moura Vicente ^(1,2)

astrid.vicente@insa.min-saude.pt

(1) Departamento de Promoção da Saúde e Prevenção de Doenças Não Transmissíveis, Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, Lisboa, Portugal

(2) Instituto de Biosistemas e Ciências Integrativas, Faculdade de Ciência, Universidade de Lisboa, Lisboa, Portugal

(3) Unidade de Neurodesenvolvimento e Autismo. Centro de Desenvolvimento da Criança. Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Coimbra, Portugal

(4) Clínica Universitária de Pediatria. Faculdade de Medicina, Universidade de Coimbra, Coimbra, Portugal

(5) Centro de Neurociências e Biologia Celular - Instituto de Imagem Biomédica e Ciências da Vida. Faculdade de Medicina da Universidade de Coimbra, Coimbra, Portugal

(6) Centro de Imagem Biomédica e Investigação Translacional, Universidade de Coimbra, Coimbra, Portugal

_Resumo

A prevalência da perturbação do espectro do autismo (PEA) em crianças foi estimada na região Centro de Portugal, no âmbito do projeto *Autism Spectrum Disorders in the European Union* (ASDEU). A metodologia de estudo baseou-se no rastreio de crianças entre os 7 e 9 anos matriculadas, no ano letivo de 2016/2017, em escolas primárias desta região. O rastreio incluiu todas as escolas com unidades de apoio especializado para crianças com problemas de neurodesenvolvimento e cerca de 10% das escolas regulares, selecionadas aleatoriamente. A sinalização das crianças foi feita pelos professores com recurso a um questionário estruturado, previamente validado, após consentimento parental. O diagnóstico foi feito através de avaliação clínica e funcional direta por equipa clínica especializada. Foram rastreadas 13 690 crianças de 173 escolas. A prevalência estimada para a PEA na região Centro foi de 0,5% (IC95% 0,3-0,7). Nas escolas com unidades de apoio especializado para autismo, observou-se uma prevalência substancialmente mais elevada de 3,3% (IC95% 2,7-3,9), indicando que a maioria das crianças está a receber o apoio educativo mais indicado. A prevalência de PEA na região Centro foi comparável a outros países envolvidos no projeto ASDEU, tendo-se, no entanto, observado assimetrias regionais na Europa.

_Abstract

The prevalence of Autism Spectrum Disorder (ASD) was analyzed in children from the região Centro of Portugal, as part of the 'Autism Spectrum Disorders in the European Union' (ASDEU) project. The study methodology was based on the screening of children aged 7 to 9 in approximately 10% of primary schools, randomly selected, and including all schools with special support units for children with neurodevelopmental problems. Teachers identified children with potential ASD-related behavior using a structured questionnaire, the 'Teacher Nomination Form', upon parental consent. The nomination was followed by a clinical and functional evaluation by an expert clinical team for diagnosis. A total of 13 690 children from 173 participating schools were screened. The prevalence of ASD in região Centro was 0.5% (95% CI 0.3-0.7). In schools with special support units for autism, a substantially higher prevalence of 3.3% (95% CI 2.7-3.9) was observed, indicating that the majority of children with ASD were receiving the most adequate educational support. The prevalence of ASD in região Centro was comparable to other countries involved in the ASDEU project, with regional asymmetries observed across Europe.

_Introdução

A Perturbação do Espetro do Autismo (PEA) é uma perturbação do neurodesenvolvimento caracterizada por alterações persistentes na comunicação e interação social e pela presença de padrões repetitivos e restritos de comportamentos, interesses ou atividades ^(1,2).

Em 1966, seguindo os critérios pioneiros de Leo Kanner ⁽³⁾, um primeiro estudo epidemiológico estimou a prevalência do autismo em cerca de 1 em cada 2500 crianças (0,04%) ⁽⁴⁾. Em Portugal continental e nos Açores, no ano escolar de 1999/2000, a prevalência do autismo foi estimada em 0,092% e 0,156%, respetivamente. ⁽⁵⁾ Múltiplos estudos desde meados da década de 90 reportaram consistentemente prevalências de autismo mais elevadas ^(6,7), sendo notória também a sua variabilidade geográfica ^(7,8). A utilização de metodologias de estudo heterogéneas tem dificultado uma comparação direta dos resultados, e consequentemente a definição de um quadro abrangente da distribuição da prevalência da PEA em termos globais. No sentido de obviar este problema, o projeto *Autism Spectrum Disorders in the European Union* (ASDEU), financiado pela Comissão Europeia, levou a cabo o estudo da prevalência da PEA em regiões de 12 países da Europa (Dinamarca, Finlândia, Itália, Espanha, Portugal, Polónia, Roménia, Bulgária, França, Áustria, Islândia e Irlanda), utilizando metodologias melhor padronizadas.

_Objetivo

O objetivo deste estudo foi estimar a prevalência da perturbação do espectro do autismo na região Centro de Portugal, no âmbito do projeto ASDEU.



Material e métodos

A população-alvo deste estudo foi composta por crianças de ambos os sexos e de qualquer etnia, com idades compreendidas entre os 7 e os 9 anos, a frequentar o ensino básico no ano escolar de 2016/2017, na região Centro de Portugal.

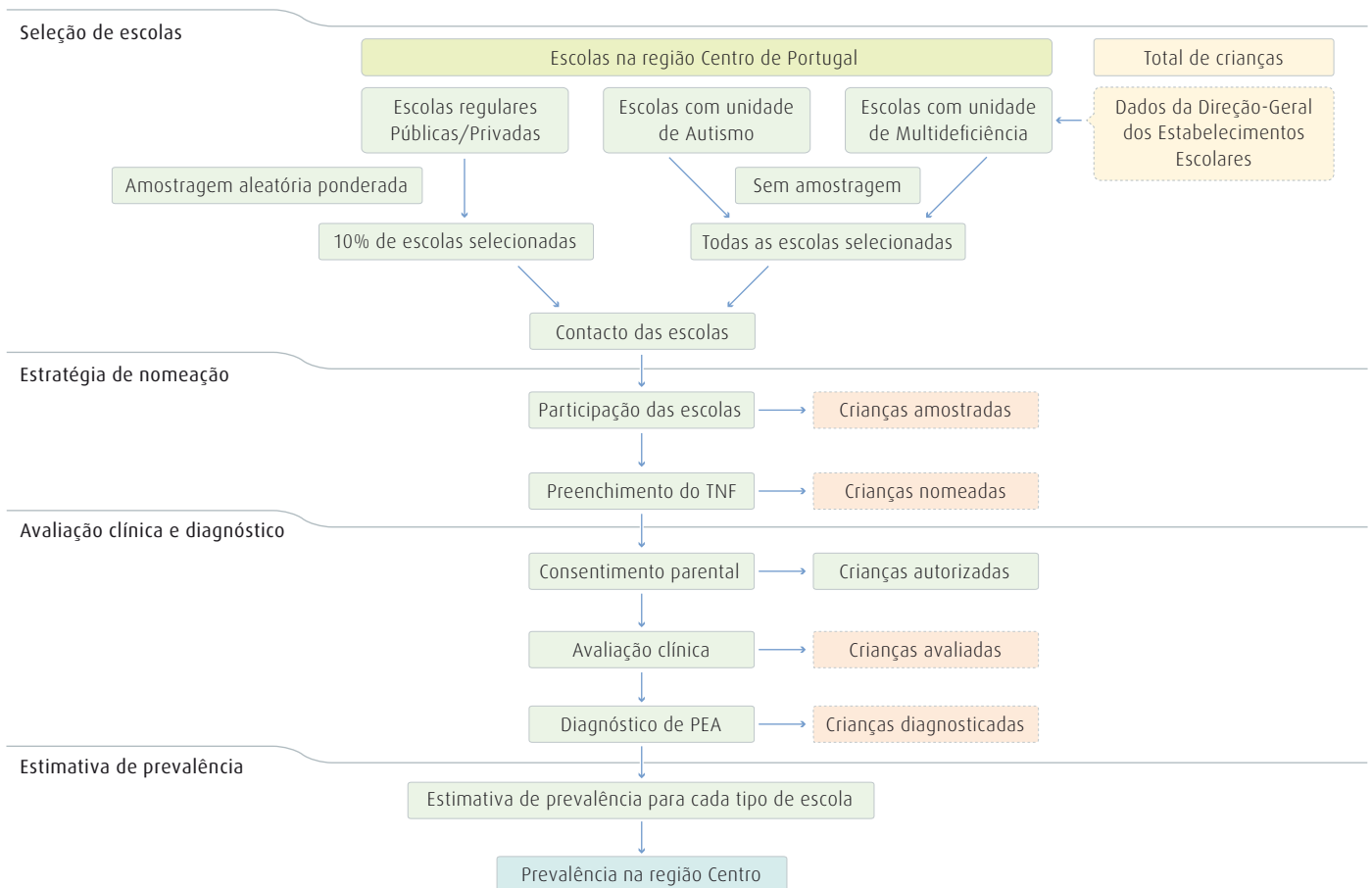
A partir dos dados fornecidos pela Direção-Geral dos Estabelecimentos Escolares, foram selecionadas para rastreio todas as escolas com 'Unidades de educação estruturada para apoio e inclusão de alunos com PEA' (UA, n=41) ou 'Unidades de apoio especializado para a educação de alunos com multideficiência e cegueira ou surdez congénita' (UM, n=34) e ainda, através de seleção aleatória, cerca de 10% das escolas públicas ou privadas sem UA ou UM (escolas regulares) da região Centro (n=122).

Toda a documentação necessária à participação no estudo foi enviada às escolas selecionadas, incluindo notas informa-

tivas para os professores e declarações de consentimento para participação. Para o rastreio das crianças nas escolas utilizou-se um questionário, designado *Teacher Nomination Form* (TNF) (9), previamente traduzido e validado. Este formulário solicita aos professores que indiquem se um ou mais dos seus alunos (até 4) apresenta uma ou mais de seis características de comportamento associadas à PEA descritas. As crianças nomeadas pelos professores foram incluídas no estudo após consentimento informado por escrito dos pais, obtido através escola.

Para diagnóstico da PEA, as crianças nomeadas foram avaliadas por equipa clínica de referência na região Centro, utilizando instrumentos de diagnóstico estandardizados e cumprindo critérios da DSM-V¹.

Figura 1: Fluxograma resumindo as fases do estudo da prevalência da PEA na região Centro de Portugal.





A prevalência da PEA (P) foi calculada para cada tipo de escola através do algoritmo:

$$P = \frac{a}{n} \frac{d}{e}$$

em que n, a, e, d correspondem respetivamente ao número de crianças amostradas, nomeadas, avaliadas e diagnosticadas em cada tipo de escola. A prevalência global (Pt) foi estimada através da fórmula:

$$P_t = \frac{\sum_i (N_i P_i)}{N_t}$$

em que o numerador representa a soma dos produtos da população total em cada tipo de escola (N1, N2, N3) pela prevalência calculada para cada tipo de escola (P1, P2, P3) e Nt representa a população total.

A [figura 1](#) descreve o fluxograma para as diferentes fases do estudo.

_Resultados

De um total de 77 717 alunos entre os 7 e 9 anos de idade, matriculados no ano escolar de 2016/2017 nas escolas da região Centro, este estudo abrangeu 13 690 alunos, cerca de 18% da população nesta faixa etária. A taxa global de resposta das escolas foi de 88%, após vários ciclos de contactos por *email*, telefone e algumas visitas presenciais (taxas de resposta de 91%, 88% e 76% para as escolas sem unidades de apoio especializado, com UA ou com UM, respetivamente). A [figura 2](#) resume os dados das várias fases do estudo.

Utilizando o TNF, os professores nomearam um total de 195 alunos (1,4% dos alunos rastreados), incluindo 60, 114 e 21 alunos de escolas regulares, com UA ou com UM, respetivamente. Foram obtidas autorizações dos pais ou responsáveis legais de 96 (49%) das crianças nomeadas para participar

Figura 2: Resultados nas várias fases do estudo – rastreio, diagnóstico e prevalência.

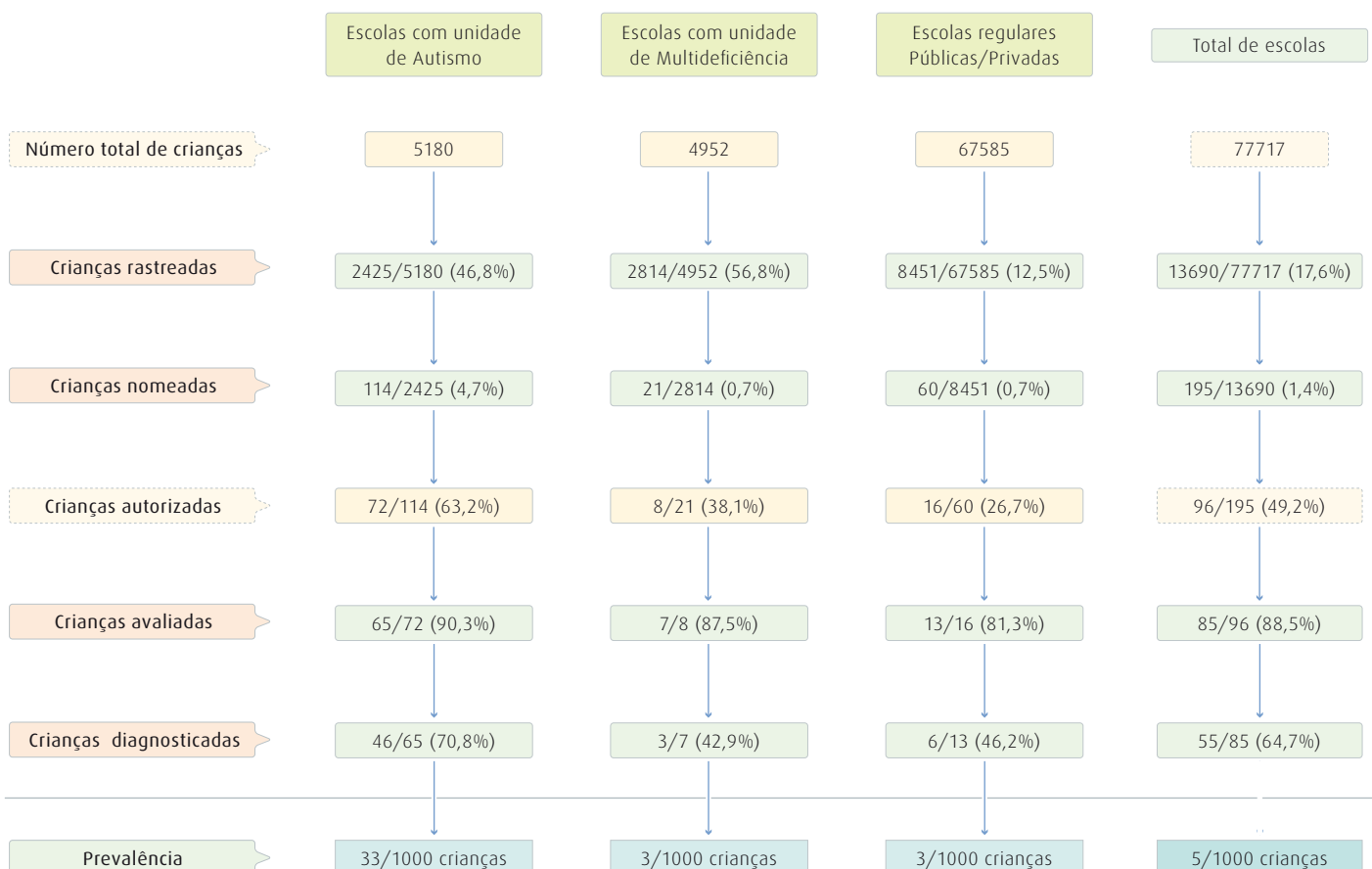




Tabela 1: Prevalência da PEA na região Centro de Portugal, global e nas três tipologias de escolas analisadas, no ano letivo de 2016/2017.

	N	n	a	e	d	P (%)	σ^2	IC 95% Limite Inferior	IC 95% Limite Superior
Escolas primárias sem unidades de apoio especializado	67 585	8 451	60	13	6	0,3	1,16x10-06	0,1	0,5
Escolas primárias com Unidades de Autismo	5 180	2 425	114	65	46	3,3	1,01x10-05	2,7	3,9
Escolas primárias com Unidades Multideficiência	4 952	2 814	21	7	3	0,3	2,00x10-06	0,04	0,6
Total	77 717	13 690	195	85	55	0,5	9,27x10-07	0,3	0,7

N – população total de crianças entre os 7 e 9 anos de idade matriculadas em escolas da região Centro de Portugal; n – número de crianças amostradas; a – número de crianças nomeadas; e – número de crianças avaliadas; d – número de crianças diagnosticadas; P – prevalência; σ^2 – variância

na fase de avaliação clínica do estudo. No total foram avaliadas 85 (89%) crianças com autorização parental, distribuídas pelas várias tipologias de escolas como indicado na [figura 2](#). O diagnóstico de PEA foi confirmado em 55 das 85 crianças avaliadas (64,7%), nomeadamente em 6, 46 e 3 crianças de escolas regulares, com UA e com UM, respetivamente.

A prevalência de PEA global na região Centro foi de 0,5% (IC95% 0,3-0,7) ([tabela 1](#)). A prevalência foi significativamente mais elevada nas escolas com UA (3,3%) do que nas escolas regulares ou com UM (0,3% em ambas as tipologias), indicando que a maioria das crianças com PEA da região Centro estava matriculada em programas educacionais que lhes proporcionariam melhores oportunidades de desenvolvimento.

Discussão e conclusão

A variabilidade na prevalência entre escolas com várias tipologias, cerca de 6 vezes mais elevada em escolas com UA, mostram que na região Centro as crianças com autismo nesta faixa etária estão na sua maioria a receber o apoio educacional mais indicado para a sua perturbação, o que se poderá traduzir, a longo prazo, num prognóstico mais favorável. Estas unidades prestam apoios diferenciados, com respostas educativas específicas que melhoram a qualidade de vida das crianças com PEA, potenciando a sua autonomia, interação e comunicação. De notar que o número de novos diagnósticos foi mais baixo nas escolas com UA do que nas

escolas regulares ou com UM, indicando que a maioria das crianças com diagnóstico prévio de PEA estavam adequadamente encaminhadas pelos serviços de referência.

Os resultados na região Centro são comparáveis à estimativa de prevalência em vários dos países do estudo ASDEU cuja metodologia de rastreio se baseou no TNF, nomeadamente no País Basco (Espanha), região de Varsóvia (Polónia) ou na Roménia, com prevalências de 0,59%, 0,69% e 0,72% ([10,11](#)), respetivamente. A prevalência foi mais baixa na região de Plovdiv (Bulgária) (0,27%) ([11](#)) e mais elevada na região de Pisa (Itália) (1,15%) ([12](#)). Apesar do ênfase numa metodologia harmonizada para o estudo ASDEU, esta não foi conseguida na sua totalidade mesmo na fase de rastreio, com regiões a omitirem o TNF e/ou a utilizarem o *Social Communication Questionnaire* (SCQ) preenchido pelos pais ([11](#)). O projeto ASDEU incluiu ainda estimativas de prevalência baseadas na análise de registos em França, Dinamarca, Finlândia e Islândia, que variaram entre 0,48% e 3,3% ([13](#)). No global, não foi possível encontrar um padrão de prevalências associado a abordagens específicas. A obtenção de intervalos de confiança mais estreitos sugere que a análise de registos, possivelmente devido à maior dimensão da população alvo, a utilização do TNF e melhores taxas de resposta de professores e pais permitem uma maior precisão nas estimativas. As razões para a variabilidade regional de prevalências observada no estudo ASDEU, incluindo de ordem social, cultural,



ambiental ou as práticas educacionais ou médicas, devem ser melhor investigadas (7,8,11,14-16).

A prevalência da PEA encontrada na região Centro foi superior à reportada relativamente ao ano escolar de 1999/2000 (5), que foi de 0,125% na região Centro. A metodologia utilizada nesse estudo epidemiológico foi muito semelhante à presente, mas alargada a todo o Portugal continental e Açores. Na altura foram encontradas assimetrias regionais marcadas na prevalência, com estimativas mais elevadas na região Centro, Lisboa e Vale do Tejo e Açores. O aumento na prevalência, em Portugal e a nível global, poderá estar relacionado com as alterações nos critérios de diagnóstico, que com a DSM-V expandiram o conceito de autismo e são mais inclusivos em termos de apresentação clínica. No primeiro estudo foi também notória a ausência de nomeações de crianças com nível funcional mais elevado, sugerindo que o conhecimento dos professores sobre comportamentos no espetro do autismo evoluiu ao longo desta década através de mais recursos, formação e informação. A maior consciencialização para a PEA de familiares e profissionais de saúde e educação e, finalmente, fatores de ordem social, biológica ou ambiental poderão ainda contribuir para o aumento da prevalência globalmente observado (7,8).

Dada a importância do conhecimento da prevalência da PEA para a adequada programação de recursos educacionais e de saúde, será importante estender este estudo a nível nacional, assim como a sua repetição periódica. Finalmente, o foco deveria ser alargado em termos de faixa etária, uma vez que as opções de vida e os recursos disponíveis são muito limitadas após a transição para a idade adulta e requerem urgente programação.

Agradecimentos:

A todas as famílias, professores e outros profissionais de educação que participaram no estudo; à Direção-Geral dos Estabelecimentos Escolares pela cedência dos dados sobre escolas.

Financiamento:

O projeto ASDEU foi financiado pelo *Directorate-General of Health and Consumers of the European Union* (DG-SANCO), ref.º: SANCO/2014/C2/035.

Referências bibliográficas:

- (1) American Psychiatric Association ; Associação Brasileira de Psiquiatria (trad.). M294 Manual diagnóstico e estatístico de transtornos DSM-5. Porto Alegre: Artmed, 2014. http://dislex.co.pt/images/pdfs/DSM_V.pdf
- (2) Lord C, Elsabbagh M, Baird G, Veenstra-Vanderweele J. Autism spectrum disorder. *Lancet*. 2018;392(10146):508-20. [https://doi.org/10.1016/s0140-6736\(18\)31129-2](https://doi.org/10.1016/s0140-6736(18)31129-2)
- (3) Kanner L. Autistic disturbances of affective contact. *Nerv. Child*.1943;2:217-50. http://www.neurodiversity.com/library_kanner_1943.pdf
- (4) Lotter V. Epidemiology of autistic conditions in young children. *Soc Psychiatry*. 1966;1(3):124-35. <https://doi.org/10.1007/BF00584048>
- (5) Oliveira G, Ataíde A, Marques C, et al. Epidemiology of autism spectrum disorder in Portugal: prevalence, clinical characterization, and medical conditions. *Dev Med Child Neurol*. 2007;49(10):726-33. <https://doi.org/10.1111/j.1469-8749.2007.00726.x>
- (6) Fombonne E. Epidemiology of pervasive developmental disorders. *Pediatr Res*. 2009;65(6):591-8. <https://doi.org/10.1203/pdr.0b013e31819e7203>
- (7) Elsabbagh M, Divan G, Koh YJ, et al. Global prevalence of autism and other pervasive developmental disorders. *Autism Res*. 2012;5(3):160-79. <https://doi.org/10.1002/aur.239>
- (8) Baxter AJ, Brugha TS, Erskine HE, et al. The epidemiology and global burden of autism spectrum disorders. *Psychol Med*. 2015;45(3):601-613. <https://doi.org/10.1017/s003329171400172x>
- (9) Hepburn SL, DiGuseppi C, Rosenberg S, et al. Use of a teacher nomination strategy to screen for autism spectrum disorders in general education classrooms: a pilot study. *J Autism Dev Disord*. 2008;38(2):373-82. <https://doi.org/10.1007/s10803-007-0404-2>
- (10) Fuentes J, Basurko A, Isasa I, et al. The ASDEU autism prevalence study in northern Spain. *Eur Child Adolesc Psychiatry*. 2020. Epub 2020 May 9 [ahead of print].
- (11) Autism Spectrum Disorders in the European Union (ASDEU) [Em linha]. Disponível em: www.ASDEU.eu
- (12) Narzisi A, Posada M, Barbieri F, et al. Prevalence of Autism Spectrum Disorder in a large Italian catchment area: a school-based population study within the ASDEU project. *Epidemiol Psychiatr Sci*. 2018;29:e5. <https://doi.org/10.1017/s2045796018000483>
- (13) Delobel-Ayoub M, Saemundsen E, Gissler M, et al. Prevalence of Autism Spectrum Disorder in 7-9-Year-Old Children in Denmark, Finland, France and Iceland: A Population-Based Registries Approach Within the ASDEU Project. *J Autism Dev Disord*. 2020;50(3):949-59. <https://doi.org/10.1007/s10803-019-04328-y>
- (14) Bachmann CJ, Gerste B, Hoffmann F. Diagnoses of autism spectrum disorders in Germany: time trends in administrative prevalence and diagnostic stability. *Autism*. 2018;22(3):283-90. <https://doi.org/10.1177/1362361316673977>
- (15) Coo H, Ouellette-Kuntz H, Lloyd JE, Kasmara L, Holden JJ, Lewis ME. Trends in autism prevalence: diagnostic substitution revisited. *J Autism Dev Disord*. 2008;38(6):1036-1046. <https://doi.org/10.1007/s10803-007-0478-x>
- (16) Hansen SN, Schendel DE, Parner ET. Explaining the increase in the prevalence of autism spectrum disorders: the proportion attributable to changes in reporting practices. *JAMA Pediatr*. 2015;169(1):56-62. <https://doi.org/10.1001/jamapediatrics.2014.1893>