



Universidade do Estado do Rio de Janeiro

Centro Biomédico

Faculdade de Ciências Médicas

Bruno Leonardo Scofano Dias

**Qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças e adolescentes com
paralisia cerebral e com mielomeningocele**

Rio de Janeiro

2025

Bruno Leonardo Scofano Dias

Qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele

Tese apresentada, como requisito parcial para obtenção do título de Doutor, ao Programa de Pós-Graduação em Ciências Médicas, da Universidade do Estado do Rio de Janeiro.

Orientador: Prof. Dr. José Luiz Muniz Bandeira Duarte

Coorientadora: Prof.^a Dra. Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues

Rio de Janeiro

2025

CATALOGAÇÃO NA FONTE
UERJ/ REDE SIRIUS/ CB/A

D541 Dias, Bruno Leonardo Scofano

Qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele / Bruno Leonardo Scofano Dias. – 2025.

150 f.

Orientador: Prof. Dr. José Luiz Muniz Bandeira Duarte

Coorientadora: Prof.^a Dra. Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues

Tese (Doutorado) – Universidade do Estado do Rio de Janeiro, Faculdade de Ciências Médicas. Pós-Graduação em Ciências Médicas.

1. Meningomielocele – Complicações – Teses. 2. Paralisia cerebral – Fisiopatologia – Teses. 3. Sobrecarga do cuidador – Psicologia – Teses. 4. Determinantes sociais da saúde – Estatística e dados numéricos – Teses. I. Duarte, José Luiz Muniz Bandeira. II. Rodrigues, Maura Calixto Cecherelli de. III. Universidade do Estado do Rio de Janeiro. Faculdade de Ciências Médicas. IV. Título.

CDU 364-787.24

Bibliotecário: Felipe Caldonazzo CRB7/7341

Autorizo, apenas para fins acadêmicos e científicos, a reprodução total ou parcial desta tese, desde que citada a fonte.

Assinatura

Data

Bruno Leonardo Scofano Dias

Qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele

Tese apresentada, como requisito parcial para obtenção do título de Doutor, ao Programa de Pós-Graduação em Ciências Médicas, da Universidade do Estado do Rio de Janeiro.

Aprovada em 05 de fevereiro de 2025.

Coorientadora: Prof.^a Dra. Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues
Faculdade de Ciências Médicas – UERJ

Banca Examinadora:

Prof. Dr. José Luiz Muniz Bandeira Duarte (Orientador)

Faculdade de Ciências Médicas - UERJ

Prof.^a Dra. Maria Cristina Caetano Kuschnir

Faculdade de Ciências Médicas - UERJ

Prof.^a Dra. Eliane Maria Garcez Oliveira da Fonseca

Faculdade de Ciências Médicas - UERJ

Prof. Dr. Giuseppe Mario Carmine Pastura

Universidade Federal do Rio de Janeiro

Prof. Dr. Álvaro Jorge Madeiro Leite

Universidade Federal do Ceará

Rio de Janeiro

2025

DEDICATÓRIA

Dedico este trabalho às minhas amadas filhas Mariana e Isabela pela oportunidade de poder me dedicar aos estudos, tomando um tempo que seria delas.

À minha amada esposa, Fernanda, pela sua compreensão e apoio incondicionais.

Ao meu falecido e amado pai, Manoel, que me ensinou a ser um homem de bem.

À minha amada mãe, Irene, exemplo de amor, resistência e força de vontade.

E acima de tudo agradeço a Deus, por tudo.

AGRADECIMENTOS

Ao Professor Doutor José Luiz Muniz Bandeira Duarte e à Professora Doutora Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues, pelo voto de confiança, pela disponibilidade, pela orientação nesta tese que me auxiliaram a saber retirar dos extensos dados disponíveis no estudo aquelas informações realmente relevantes para os objetivos do estudo, pelo incentivo ao aprendizado no método científico aprimorado durante o curso de Doutorado do Programa de Pós-graduação em Ciências Médicas da Universidade do Estado do Rio de Janeiro, pela coautoria nos artigos que foram construídos e por todas as considerações de vital importância na elaboração desta tese.

Ao Corpo Docente do Programa de Pós-graduação em Ciências Médicas da Universidade do Estado do Rio de Janeiro.

À equipe de profissionais da Reabilitação Infantil do Centro Internacional SARAH de Neuorreabilitação e Neurociências pelo auxílio no recrutamento dos pacientes.

E, por último, mas não de menor importância, às crianças e às suas famílias pela participação nesta pesquisa, pela oportunidade de me tornar um médico melhor e, através da minha profissão, um ser humano mais empático, mais caridoso e um espírito mais evoluído.

Aprender é a única coisa de que a mente nunca se cansa, nunca tem medo e nunca se arrepende.

Leonardo da Vinci

Amai a DEUS sobre todas as coisas e ao próximo como a ti mesmo.

Jesus Cristo

RESUMO

DIAS, Bruno Leonardo Scofano. **Qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele**. 2025. 150 f. (Doutorado em Ciências Médicas) – Faculdade de Ciências Médicas, Universidade do Estado do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, 2025.

A paralisia cerebral é uma das principais causas de incapacidade infantil e a mielomeningocele é uma das malformações congênitas mais comuns. Em ambas, as consequências funcionais e as comorbidades geram impactos na sobrecarga do cuidador, na qualidade de vida da família e dos irmãos. Tais dimensões interagem dinamicamente de acordo com características do cuidador, da família e dos irmãos. Este estudo teve por objetivo geral caracterizar separadamente sobrecarga do cuidador e qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças com paralisia cerebral e com mielomeningocele, e por objetivos secundários verificar as correlações entre sobrecarga do cuidador, qualidade de vida das famílias e dos irmãos entre si, as correlações entre sobrecarga do cuidador, qualidade de vida das famílias e dos irmãos com variáveis sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes e a qualidade de vida dos irmãos tendo como parâmetro a qualidade de vida de pares brasileiros com desenvolvimento típico. Foi realizado estudo transversal. As 212 famílias, 212 cuidadores e 131 irmãos de crianças com paralisia cerebral e as 150 famílias, 150 cuidadores e 68 irmãos de crianças com mielomeningocele preencheram os questionários Family Quality of Life Scale, Burden Interview, e KIDSCREEN-27 Child and Adolescent e Parents Version. Foram construídos modelos univariados e multivariados. Em ambas as amostras, a qualidade de vida da família e a sobrecarga dos cuidadores foram importantes fatores de influência significativa entre si. A qualidade de vida da família foi significativamente menor naqueles com maior sobrecarga dos cuidadores, a qual foi significativamente mais baixa à medida que a qualidade de vida da família aumentava, e os irmãos tiveram qualidade de vida significativamente pior do que a de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico. Na amostra paralisia cerebral, a qualidade de vida da família foi significativamente maior nas famílias com nível educacional baixo, a qualidade de vida autorreferida dos irmãos foi significativamente mais baixa com o aumento da idade dos irmãos e da sobrecarga dos cuidadores, e nas famílias com dois responsáveis legais e a qualidade de vida dos irmãos relatada pelos pais foi pior e melhor, respectivamente, à medida que a sobrecarga dos cuidadores e a qualidade de vida da família aumentaram. Na amostra mielomeningocele, a qualidade de vida autorrelatada dos irmãos foi significativamente pior à medida que a idade aumentava e melhor com a elevação dos níveis de qualidade de vida da família, e a qualidade de vida dos irmãos relatada pelos pais foi pior e melhor, respectivamente, com maiores níveis de sobrecarga dos cuidadores e de qualidade de vida da família. Apesar da natureza transversal dos dados disponíveis impedir afirmações de causalidade, os resultados reforçam a relevância de conhecer os fatores que influenciam a qualidade de vida de famílias e dos irmãos de crianças com paralisia cerebral e com meningomielocle e de ações voltadas a reduzir a sobrecarga dos cuidadores, melhorar a qualidade de vida da família e atender às necessidades individuais dos irmãos. Futuros estudos multicêntricos podem validar a generalização dos nossos resultados.

Palavras-chave: qualidade de vida; família; irmão; criança; adolescente; paralisia cerebral; mielomeningocele.

ABSTRACT

DIAS, Bruno Leonardo Scofano. *Quality of life of families and siblings of children and adolescents with cerebral palsy and meningomyelocele*. 2025. 150 f. (Doutorado em Ciências Médicas) – Faculdade de Ciências Médicas, Universidade do Estado do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, 2025.

Cerebral palsy is one of the main causes of childhood disability and myelomeningocele is one of the most common congenital malformations. In both conditions, the functional consequences and comorbidities generate impacts on the caregiver's burden and on the family and siblings' quality of life. Such dimensions interact dynamically according to characteristics of caregivers, family and siblings. The general objective of this study was to separately characterize caregivers' burden, family and siblings' quality of life of children with cerebral palsy and myelomeningocele. The secondary objectives were to verify the correlations between caregivers' burden, family and siblings' quality of life, the correlations between caregivers' burden, family and siblings' quality of life with sociodemographic, functional and clinical variables of the patients and the quality of life of siblings using as a parameter the quality of life of Brazilian peers with typical development. A cross-sectional study was carried out. The 212 families, 212 caregivers and 131 siblings of children with cerebral palsy and the 150 families, 150 caregivers and 68 siblings of children with myelomeningocele completed the Family Quality of Life Scale, Burden Interview, and KIDSCREEN-27 Child and Adolescent and Parents Version questionnaires. Univariate and multivariate models were constructed. In both samples, family quality of life and caregivers' burden were important factors that significantly influenced each other. The family quality of life was significantly lower in those with greater caregivers' burden, which was significantly lower as the family quality of life increased, and siblings had a significantly worse quality of life than that of Brazilian children and adolescents with typical development. In the cerebral palsy sample, the family quality of life was significantly higher in families with a low educational level, the self-reported quality of life of siblings was significantly lower with increasing age of siblings and caregiver burden, and in families with two legal guardians and siblings' quality of life outcomes reported by the parents were worse and better, respectively, as caregiver burden and family quality of life increased. In the myelomeningocele sample, siblings' self-reported quality of life was significantly worse as age increased and better as family quality of life levels increased, and siblings' parent-reported quality of life was worse and better, respectively, with higher levels of caregiver burden and family quality of life. Although the cross-sectional nature of the available data prevents assertions of causality, the results reinforce the relevance of knowing the factors that influence the quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy and meningomyelocele and of actions aimed at reducing the burden on caregivers, improving the family quality of life and meeting the siblings' individual needs. Future multicenter studies may validate the generalizability of our results.

Keywords: quality of life; family; brother; child; adolescent; cerebral palsy; meningomyelocele.

LISTA DE FIGURAS

Figura 1 –	Comorbidades mais comuns na PC.....	20
Figura 2 –	Morbidades mais comuns em crianças com mielomeningocele.....	22
Figura 3 –	Impactos no cuidador, na família e nos irmãos.....	23
Figura 4 –	Representação esquemática do objetivo geral e dos objetivos secundários.....	38
Figura 5 –	Representação esquemática das etapas do estudo.....	50
Figura 6 –	Resumo dos principais resultados do estudo.....	65

LISTA DE GRÁFICOS

Gráfico 1 –	Frequência (porcentagem) dos níveis de satisfação com a qualidade de vida da família na paralisia cerebral aferidos pela Family Quality of Life Scale.....	53
Gráfico 2 –	Frequência (porcentagem) dos níveis de sobrecarga do cuidador na paralisia cerebral aferidos pela Burden Interview.....	54
Gráfico 3 –	Pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN Parent Version dos irmãos na paralisia cerebral.....	57
Gráfico 4 –	Frequência (porcentagem) dos níveis de satisfação com a qualidade de vida da família na mielomeningocele aferidos pela Family Quality of Life Scale.....	60
Gráfico 5 –	Frequência (porcentagem) dos níveis de sobrecarga do cuidador na mielomeningocele aferidos pela Burden Interview.....	60
Gráfico 6 –	Pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN Parent Version dos irmãos na mielomeningocele.....	63

LISTA DE QUADROS

Quadro 1 –	Fatores de impacto na sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	28
Quadro 2 –	Fatores de impacto na qualidade de vida dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	29
Quadro 3 –	Resultados de estudos relacionados à qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	31
Quadro 4 –	Fatores de impacto na sobrecarga do cuidador da criança/adolescente com mielomeningocele.....	34
Quadro 5 –	Fatores de impacto na qualidade de vida do cuidador da criança/adolescente com mielomeningocele.....	35

LISTA DE TABELAS

Tabela 1 –	Definições dos sistemas de classificação funcional na paralisia cerebral.....	21
Tabela 2 –	Principais características dos estudos relacionados à sobrecarga dos cuidadores de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	28
Tabela 3 –	Principais características dos estudos relacionados à qualidade de vida dos cuidadores de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	29
Tabela 4 –	Principais características dos estudos especificamente relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	30
Tabela 5 -	Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	33
Tabela 6 –	Principais características dos estudos relacionados à sobrecarga e à qualidade de vida dos cuidadores de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....	34
Tabela 7 –	Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....	35
Tabela 8 –	Principais características dos estudos relacionados a dimensões de vida de irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....	36
Tabela 9 –	Características sociodemográficas das famílias da amostra paralisia cerebral.....	53
Tabela 10 –	Características sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes da amostra paralisia cerebral.....	54
Tabela 11 –	Características sociodemográficas dos irmãos da amostra paralisia cerebral	55
Tabela 12 –	Comparação das médias de pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico na amostra paralisia cerebral.....	56
Tabela 13 –	Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da Family	

	Quality of Life Scale e da Burden Interview na amostra paralisia cerebral....	58
Tabela 14 –	Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra paralisia cerebral.....	58
Tabela 15 –	Variáveis sociodemográficas das famílias da amostra mielomeningocele....	59
Tabela 16 –	Variáveis sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes da amostra mielomeningocele.....	61
Tabela 17 –	Variáveis sociodemográficas dos irmãos da amostra mielomeningocele.....	61
Tabela 18 –	Comparação das médias de pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico na amostra mielomeningocele.....	62
Tabela 19 –	Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da Family Quality of Life Scale e da Burden Interview na amostra mielomeningocele..	64
Tabela 20 -	Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra mielomeningocele.....	64

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

AE	Ambiente escolar
AGD	Atraso global do desenvolvimento
ARP	Autonomia e relação com os pais
BEP	Bem-estar psicológico
BI	Burden Interview
CAAE	Certificado de Apresentação de Certificação Ética
CVIL	Cateterismo vesical intermitente limpo
CEF	Classificação econômica familiar
CIF	Classificação Internacional de Funcionalidade, Incapacidade e Saúde
CFCS	Communication Function Classification System
CABDT	Crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico
DI	Deficiência intelectual
DP	Desvio padrão
EDACS	Eating and Drinking Ability Classification System
EF	Escolaridade familiar
FQoLS	Family Quality of Life Scale
FEM	Feminino
GMFCS	Gross Motor Function Classification System
IC	Intervalo de confiança
IC95%	Intervalo de confiança de 95%
IIQ	Intervalo interquartil
KID CAV	KIDSCREEN 27 Child and Adolescent Version
KID PAV	KIDSCREEN 27 Child and Parent Version
MACS	Manual Ability Classification System
MASC	Masculino
MMC	Mielomeningocele
OMS	Organização Mundial da Saúde
PC	Paralisia cerebral
QV	Qualidade de vida
QVRS	Qualidade de vida relacionada a saúde

RL	Responsável legal
SBEF	Saúde e bem-estar físico
SSP	Suporte social e pares
TALE	Termo de Assentimento Livre e Esclarecido
TCLE	Termo de Consentimento Livre e Esclarecido
VABS	Vineland Adaptive Behavior Scales
VFCS	Visual Function Classification System

SUMÁRIO

	INTRODUÇÃO.....	19
1	FUNDAMENTAÇÃO TEÓRICA.....	25
1.1	Sobrecarga do cuidador	25
1.2	Qualidade de vida	25
1.3	Qualidade de vida relacionada à saúde.....	26
1.4	Qualidade de vida da família.....	26
1.5	Qualidade de vida dos irmãos.....	26
1.6	Sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	27
1.7	Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	30
1.8	Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....	32
1.9	Sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com mielomeningocele.....	34
1.10	Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....	35
1.11	Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....	36
2	OBJETIVOS	38
2.1	Objetivo geral	38
2.2	Objetivos secundários	38
3	MÉTODOS	39
3.1	Desenho do estudo.....	39
3.2	Critérios de inclusão.....	39
3.3	Critérios de exclusão.....	39
3.4	Coleta dos dados.....	40
3.5	Instrumentos utilizados no estudo	40
3.5.1	<u>Instrumento de aferição de sobrecarga - Burden Interview.....</u>	40

3.5.2	<u>Instrumentos de aferição de qualidade de vida.....</u>	41
3.5.2.1	Instrumento de aferição de qualidade de vida da família - Family Quality of Life Scale.....	41
3.5.2.2	Instrumentos de aferição de qualidade de vida dos irmãos - KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version / Parent Version.....	42
3.5.3	<u>Instrumentos de classificação funcional.....</u>	42
3.5.3.1	Instrumentos de classificação funcional na paralisia cerebral.....	42
3.5.3.1.1	Gross Motor Function Classification System.....	43
3.5.3.1.2	Eating and Drinking Ability Classification System.....	43
3.5.3.2	Instrumento de classificação funcional na mielomeningocele - Critérios de Hoffer.....	43
3.5.4	<u>Instrumento de avaliação da capacidade intelectual na paralisia cerebral - Vineland Adaptive Behavior Scales.....</u>	44
3.5.5	<u>Instrumento de classificação de classe econômica familiar - Critério Brasil da Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa.....</u>	44
3.6	Definição das variáveis.....	45
3.6.1	<u>Variáveis sociodemográficas.....</u>	45
3.6.2	<u>Variáveis funcionais da criança/adolescente com paralisia cerebral.....</u>	45
3.6.3	<u>Variável do neurodesenvolvimento da criança/adolescente com paralisia cerebral.....</u>	45
3.6.4	<u>Variável clínica da criança/adolescente com paralisia cerebral.....</u>	46
3.6.5	<u>Variável funcional da criança/adolescente com mielomeningocele.....</u>	46
3.6.6	<u>Variáveis clínicas da criança/adolescente com mielomeningocele.....</u>	46
3.6.7	<u>Variável de sobrecarga do cuidador.....</u>	47
3.6.8	<u>Variável de satisfação com a qualidade de vida da família.....</u>	47
3.6.9	<u>Qualidade de vida de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.....</u>	47
3.6.10	Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele.....	47
3.7	Protocolos de coleta dos dados.....	47

3.7.1	<u>Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....</u>	48
3.7.2	<u>Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral.....</u>	48
3.7.3	<u>Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....</u>	49
3.7.4	<u>Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele.....</u>	49
3.8	Análise estatística.....	51
3.9	Aspectos éticos.....	51
4	RESULTADOS.....	53
4.1	Amostra paralisia cerebral.....	53
4.1.1	<u>Dados sociodemográficos, funcionais, neurodesenvolvimentais e clínicos.....</u>	53
4.1.1.1	Famílias e cuidadores.....	53
4.1.1.2	Pacientes, irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.....	54
4.1.2	<u>Modelos univariados.....</u>	56
4.1.2.1	Qualidade de vida autorreferida de irmãos e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.....	56
4.1.2.2	Qualidade de vida dos irmãos autorrelatada e relatada pelos pais.....	56
4.1.3	<u>Modelos multivariados.....</u>	57
4.1.3.1	Modelos multivariados de qualidade de vida da família e de sobrecarga do cuidador.....	57
4.1.3.2	Modelos multivariados de qualidade de vida dos irmãos.....	58
4.2	Amostra mielomeningocele.....	59
4.2.1	<u>Dados sociodemográficos, funcionais e clínicos.....</u>	59
4.2.1.1	Famílias e cuidadores.....	59
4.2.1.2	Pacientes, irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.....	60
4.2.2	<u>Modelos univariados.....</u>	62
4.2.2.1	Qualidade de vida autorreferida de irmãos e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.....	62
4.2.2.2	Qualidade de vida dos irmãos autorrelatada e relatada pelos pais.....	62

4.2.3	<u>Modelos multivariados.....</u>	63
4.2.3.1	<u>Modelos multivariados de qualidade de vida da família e de sobrecarga do cuidador.....</u>	63
5	DISCUSSÃO	66
5.1	Amostra paralisia cerebral.....	66
5.1.1	<u>Qualidade de vida da família na paralisia cerebral.....</u>	66
5.1.2	<u>Sobrecarga dos cuidadores na paralisia cerebral.....</u>	68
5.1.3	<u>Qualidade de vida dos irmãos na paralisia cerebral.....</u>	69
5.2	Amostra mielomeningocele.....	70
5.2.1	<u>Qualidade de vida da família na mielomeningocele.....</u>	70
5.2.2	<u>Sobrecarga dos cuidadores na mielomeningocele.....</u>	71
5.2.3	<u>Qualidade de vida dos irmãos na mielomeningocele.....</u>	72
5.3	Limitações e pontos fortes do estudo.....	73
	CONCLUSÃO.....	75
	REFERÊNCIAS	76
	APÊNDICE A – Termo de consentimento livre e esclarecido.....	91
	APÊNDICE B – Termo de assentimento livre e esclarecido.....	94
	APÊNDICE C - Ficha de coleta de dados qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	96
	APÊNDICE D - Ficha de coleta de dados qualidade de vida dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral.....	98
	APÊNDICE E - Ficha de coleta de dados qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com mielomeningocele.....	101
	APÊNDICE F - Ficha de coleta de dados qualidade de vida dos irmãos de crianças/adolescentes com mielomeningocele.....	103
	APÊNDICE G – Artigo “Quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy treated at a reference neurorehabilitation center in Brazil” publicado online (no prelo para publicação impressa) no periódico Jornal de Pediatria.....	104
	APÊNDICE H – Artigo “Quality of life of families and siblings of children and adolescents with meningomyelocele” publicado online (no prelo para publicação impressa) no periódico Child: Care, Health & Development.....	114

ANEXO A – Burden Interview.....	123
ANEXO B – Family Quality of Life Scale.....	126
ANEXO C – Autorização dos autores da tradução e adaptação no Brasil para uso da Family Quality of Life Scale.....	127
ANEXO D - KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version.....	128
ANEXO E - KIDSCREEN-27 Parent Version.....	132
ANEXO F - Autorização dos autores para uso da KIDSCREEN-27.....	135
ANEXO G - Gross Motor Function Classification System.....	136
ANEXO H - Eating and Drinking Ability Classification System.....	137
ANEXO I - Critérios de Hoffer.....	138
ANEXO J – Vineland Adaptative Behavioral Scales.....	139
ANEXO K - Critério Brasil da Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa	140
ANEXO L - Aprovação pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Rede SARAH de Hospitais de Reabilitação.....	141

INTRODUÇÃO

A paralisia cerebral (PC) não é uma doença separada e definida, é um termo abrangente que engloba sintomas etiológicamente diversos, que mudam com a idade. De acordo com a definição atual, desenvolvida por uma equipe internacional de especialistas, PC descreve um grupo de desordens permanentes do desenvolvimento do movimento e da postura, causando limitação de atividade, que são atribuídos a distúrbios não progressivos que ocorreram no cérebro fetal ou infantil em desenvolvimento. Os transtornos motores da PC são frequentemente acompanhados por distúrbios sensitivos, cognitivos, da comunicação e do comportamento; por epilepsia, e por problemas musculoesqueléticos secundários (Bax *et al*, 2005; Cans *et al*, 2007; Rosenbaum *et al*, 2007; Sadowska *et al*, 2020).

A PC é a deficiência física mais comum da infância (Novak *et al*, 2020; Sadowska *et al*, 2020; Vitrikas, 2020), e mundialmente ocorre em 2.11/1000 nascidos vivos, com indicadores mais elevados em bebês cujo peso ao nascer variou de 1000g a 1499g (59.18/1000 nascidos vivos) e em bebês nascidos antes da 28ª semana de gravidez (111.8/1000 nascidos vivos) (Oskoui *et al*, 2013; Sadowska *et al*, 2020). No Brasil não existem dados precisos, porém alguns autores estimam 7/1000 nascidos vivos (Braccialli *et al*, 2016).

A PC tem múltiplas etiologias que podem afetar diferentes partes do cérebro, contribuindo para uma ampla gama de achados clínicos (Vitrikas, 2020). Assim, além da deficiência física e das limitações decorrentes, a PC pode levar a comorbidades como transtornos clínicos, neurológicos, ortopédicos, sensoriais, da saúde mental e do neurodesenvolvimento, com ampla faixa de gravidade. Na figura 1 são mostradas as comorbidades mais comuns (Novak, 2014).

A Classificação Internacional de Funcionalidade, Incapacidade e Saúde (CIF) da Organização Mundial da Saúde (OMS) destaca a importância da avaliação das consequências funcionais de todos os estados de saúde (World Health Organization, 2001; World Health Organization, 2007). Nos últimos 20 anos, tem havido uma consciência crescente da importância da classificação dos impactos das deficiências subjacentes à PC na atividade e na participação (Rosenbaum, 2004).

Figura 1 – Comorbidades mais comuns na PC



Fonte: NOVAK, 2014.

Desta forma, novos sistemas de classificação para habilidades motoras grossas (Gross Motor Function Classification System - GMFCS), manuais (Manual Ability Classification System - MACS), na comunicação (Communication Function Classification System - CFCS), no comer/beber (Eating and Drinking Ability Classification System - EDACS) e na função visual (Visual Function Classification System - VFCS) foram desenvolvidas (Palisano *et al*, 1997; Eliasson *et al*, 2007; Hidecker *et al*, 2011; Sellers *et al*, 2014; Baranello *et al*, 2020). Todas essas classificações enfatizam a necessidade de descrever as habilidades das crianças em vez de suas deficiências, com foco em como elas habitualmente se comportam em situações do mundo real (Baranello *et al*, 2020). Os sistemas de classificação estão descritos de forma resumida na tabela 1.

Tabela 1 - Definições dos sistemas de classificação funcional na paralisia cerebral (continua)

Nível	GMFCS	MACS	CFCS	EDACS	VFCS
I	Marcha sem limitações	Manipula objetos facilmente com sucesso	Envia e recebe com familiares e não familiares efetiva e eficientemente	Come e bebe de forma segura e eficiente	Usa a função visual facilmente e com sucesso nas atividades relacionadas à visão
II	Marcha com limitações	Manipula objetos com alguma redução na qualidade e/ou na velocidade	Envia e recebe com familiares e não familiares mas necessita de tempo extra	Come e bebe de forma segura mas com algumas limitações na eficiência	Usa a função visual com sucesso mas necessita de estratégias compensatórias

Tabela 1 - Definições dos sistemas de classificação funcional na paralisia cerebral
(continuação)

Nível	GMFCS	MACS	CFCS	EDACS	VFCS
III	Marcha com apoio de um dispositivo portátil de mobilidade	Manipula objetos com dificuldades, necessita de ajuda para preparar e/ou modificar atividades	Envia e recebe com familiares efetivamente mas não com não familiares	Come e bebe com algumas limitações na segurança; pode haver limitações na eficiência	Usa a função visual mas necessita de adaptações
IV	Automobilidade com limitações; pode usar dispositivo de mobilidade motorizada	Manipula poucos objetos facilmente manipuláveis, em situações adaptadas	Envia e recebe de forma inconsistente mesmo com familiares	Come e bebe com significativas limitações na segurança	Usa a função visual em ambientes muito adaptados mas realiza apenas parte das atividades relacionadas à visão
V	Transportado em cadeira de rodas	Não manipula objetos com importante limitação mesmo para ações simples	Raramente envia e recebe de forma efetiva mesmo com familiares	Incapaz de comer e beber com segurança; deve ser considerada gastrostomia	Não usa a função visual mesmo em ambientes muito adaptados

Legendas: Gross Motor Function Classification System (GMFCS); Manual Ability Classification System (MACS); Communication Function Classification System (CFCS); Eating and Drinking Ability Classification System (EDACS); Visual Function Classification System (VFCS).

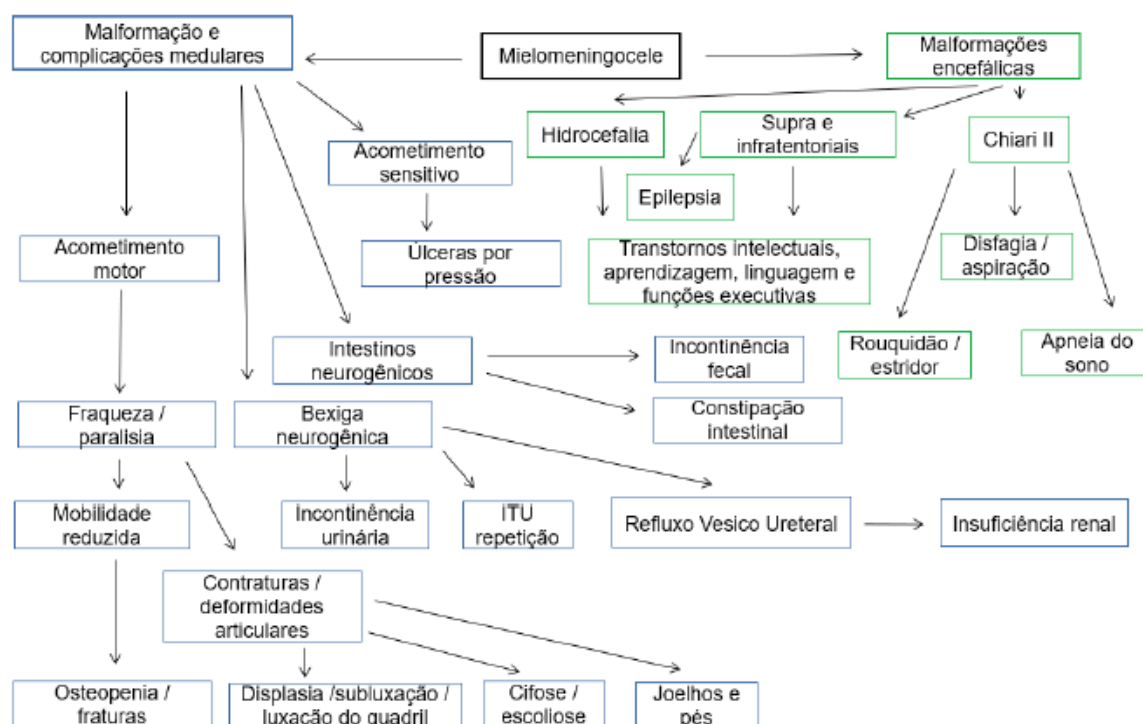
Fonte: BARANELLO *et al*, 2020.

Mielomeningocele (MMC) é um defeito congênito no qual o tubo neural não se fecha durante o desenvolvimento embrionário. O tecido neural exposto se degenera no útero, resultando em déficits neurológicos. A MMC ocorre em cerca de 1/1000 nascimentos em todo o mundo, sendo uma das malformações congênitas mais comuns (Copp, 2015). Quanto menor o desenvolvimento socioeconômico do país, maior o índice de MMC, conforme mostra o mapa de defeitos congênitos publicado pela OMS (Grillo *et al*, 2003; World Health Organization, 2003; Buoro *et al*, 2020). Existem vários relatos de prevalência de MMC no Brasil e na América Latina na literatura, com média de 1.01/1000 nascidos vivos (Bevilacqua *et al*, 2015; Buoro *et al*, 2020).

Os indivíduos com MMC frequentemente apresentam déficit neurológico motor e sensorial abaixo do nível da lesão. Isso pode resultar em fraqueza dos membros inferiores ou paralisia que prejudica ou impede a marcha, e déficit sensitivo que aumenta o risco de lesões por pressão. A incontinência urinária (bexiga neurogênica) e a incontinência fecal (intestinos neurogênicos) ocorrem com frequência, assim como a hérnia rombencefálica (malformação de Chiari II) e a hidrocefalia associada, que frequentemente requer derivação. Anormalidades

ortopédicas, incluindo pés tortos, contraturas, luxação do quadril, escoliose e cifose, são frequentemente observadas (figura 2). A gravidade dos distúrbios neurológicos e dos problemas ortopédicos muda de acordo com o tamanho e a localização do defeito. Altos níveis de lesão levam a piores resultados e a incapacidades mais graves (Fletcher *et al*, 2005; Adzick, 2010; Adzick, 2012; Macedo *et al*, 2014; Copp, 2015; Danzer *et al*, 2019; Şeker Abanoz *et al*, 2020).

Figura 2 – Morbidades mais comuns em crianças com mielomeningocele



Fonte: LIMA, 2023.

As consequências funcionais na capacidade de locomoção de indivíduos com MMC podem ser classificadas de acordo com os critérios de Hoffer: deambulador comunitário, deambulador doméstico, deambulador não funcional e não deambulador (Hoffer *et al*, 1973).

A imobilidade musculoesquelética pode também contribuir para atrasos sociais e cognitivos (Christensen *et al*, 2014; Luz *et al*, 2017) e o uso de dispositivos de mobilidade tem sido associado a um melhor desenvolvimento cognitivo e social (Lynch *et al*, 2009; Luz *et al*, 2017).

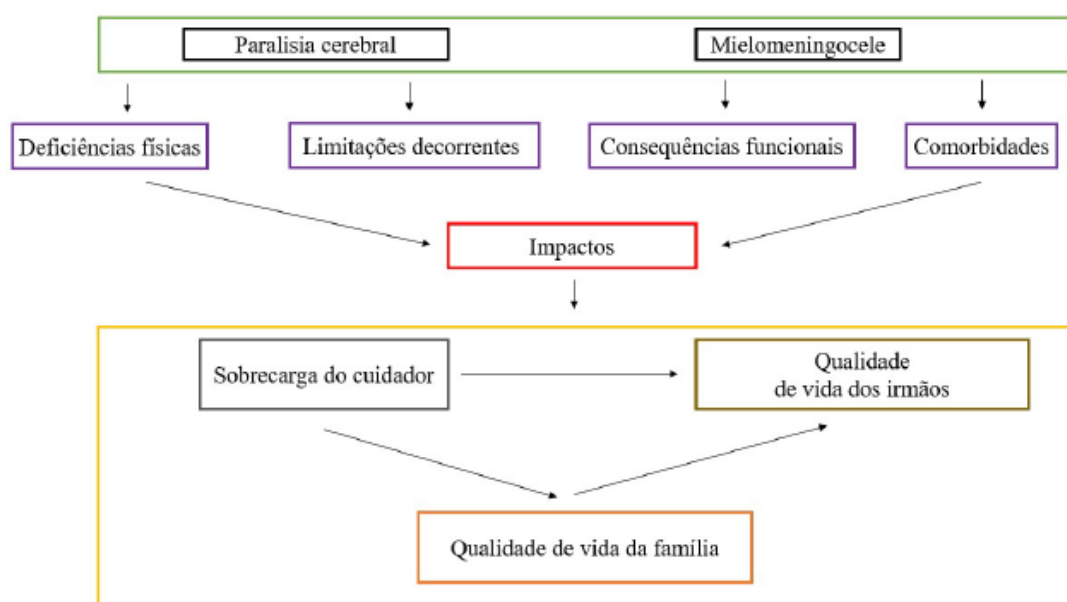
Roebroek *et al* (2006) descreveram a relação entre a função cognitiva e o nível de lesão na MMC. Eles evidenciaram que níveis mais altos estavam associados a resultados cognitivos piores (Luz *et al*, 2017). Malformação de Chiari e hidrocefalia foram associadas a déficits intelectuais (Iddon *et al*, 2004; Lindquist *et al*, 2009; Luz *et al*, 2017). Um número maior de

derivações influenciou negativamente os resultados cognitivos (Hetherington *et al*, 2006; Luz *et al*, 2017). Os resultados motores e cognitivos parecem influenciar a aquisição de mobilidade, que impacta o desenvolvimento e a independência na idade adulta (Iddon *et al*, 2004; Lindquist *et al*, 2009; Dennis *et al*, 2006; Dennis *et al*, 2010; Luz *et al*, 2017).

O pensamento moderno sobre a saúde da criança, conforme incorporado no quadro da CIF da OMS – Versão Criança e Juventude, exige que estejamos atentos ao contexto da vida das crianças, nomeadamente das suas famílias e ao bem-estar destas famílias (Rosembaum, 2011). Tal conceito se aplica totalmente nos casos de PC e de MMC em que cada vez mais se demonstra que as intervenções mais efetivas são aquelas centradas na família (Kim *et al*, 2021).

Tanto na PC quanto na MMC, as deficiências físicas, as limitações decorrentes, as consequências funcionais, assim como as comorbidades, geram impactos na sobrecarga sentida pelo principal cuidador, na qualidade de vida (QV) da família como um todo e, também, na QV dos irmãos. Tais dimensões interagem dinamicamente de acordo com características do cuidador, da família e dos irmãos (figura 3).

Figura 3 – Impactos no cuidador, na família e nos irmãos



Fonte: O autor, 2024.

Dadas as importantes interações entre as características das crianças com PC e com MMC, dos seus cuidadores, das suas famílias e dos seus irmãos, como pediatra, atuando na área de pediatria do desenvolvimento e do comportamento, pensamos ser de extrema relevância estudar a sobrecarga sentida pelo principal cuidador, a QV das famílias e a QV dos irmãos na PC e na MMC, as correlações entre estas dimensões e as possíveis associações entre estas

dimensões e características sociodemográficas, funcionais, neurodesenvolvimentais e clínicas das crianças PC e com MMC, e características sociodemográficas das famílias e dos irmãos.

1 FUNDAMENTAÇÃO TEÓRICA

1.1 Sobrecarga do cuidador

O cuidador informal é representado pelo segmento leigo, normalmente um membro da família, o que resulta na expressão “cuidador”. Essa pessoa assume a responsabilidade, dedicando grande parte de seu cotidiano a rotinas de cuidado com a pessoa doente, com pouco ou quase nenhum conhecimento técnico, mas em resposta às necessidades que as condições de vida lhe impõem (Marques, 2011; Oliveira *et al*, 2019). No entanto, este cuidador informal absorve uma sobrecarga, a qual é caracterizada pelo fato de o cuidador familiar se ver sem apoio e permanentemente diante de situações de enfrentamento, ocasionando queixas de ordem objetiva e subjetiva, associadas ao cuidado realizado (Barroso *et al*, 2007; Oliveira *et al*, 2019). A sobrecarga objetiva se refere às consequências negativas geradas pelo papel do cuidador, como alterações na rotina e prejuízos na vida social e profissional. Já a sobrecarga subjetiva remete às percepções, preocupações, sentimentos negativos e incômodos gerados por se tornar cuidador de um paciente dependente (Barroso *et al*, 2007; Oliveira *et al*, 2019).

1.2 Qualidade de vida

Segundo a OMS, QV representa as percepções dos indivíduos sobre sua posição na vida no contexto da cultura e dos sistemas de valores em que vivem e em relação aos seus objetivos, expectativas, padrões e preocupações. É um conceito amplo que incorpora de forma complexa a saúde física, o estado psicológico, o nível de independência, as relações sociais, as crenças pessoais e as suas relações com as características salientes do meio ambiente. O principal elemento desta ideia é que a QV é uma percepção subjetiva das questões da vida, ao invés de um indicador objetivo de vida (World Health Organization, 1998; Sadeghi *et al*, 2014). Neste sentido, QV se refere a um julgamento sumativo sobre todos os aspectos da vida de uma pessoa. Intuitivamente, qualquer consideração operacional de QV deve ser congruente com a estrutura de QV proposta pela OMS (Huebner *et al*, 2004; Ronen *et al*, 2018).

QV aborda aspectos e processos de vida semelhantes para todos. É um conceito pessoal e único que é mais bem visto da própria perspectiva do indivíduo e descreve a QV individual (Poston *et al*, 2003; Moyson *et al*, 2012; Harris *et al*, 2014).

1.3 Qualidade de vida relacionada à saúde

Qualidade de vida relacionada a saúde (QVRS) é frequentemente definida de forma ambígua e pode representar vários conceitos dependendo do instrumento de mensuração ou do pesquisador (Fayed *et al*, 2012; Sadeghi *et al*, 2014). A QVRS pode ser interpretada por alguns como uma visão ampla da saúde que inclui os domínios emocionais e sociais, enquanto outros definem QVRS como o impacto objetivo de uma condição de saúde na vida de alguém (Huebner *et al*, 2004; Taylor *et al*, 2008; Sadeghi *et al*, 2014).

A QVRS de pessoas com doenças crônicas tem sido objeto de discussões e de pesquisas nas últimas duas décadas com o objetivo de avaliar o controle e o nivelamento da Carga Global de Doenças, não só dos pacientes, mas também de seus familiares ou dos seus cuidadores (Costa *et al*, 2019).

1.4 Qualidade de vida da família

QV da família é uma sensação dinâmica de bem-estar, definida coletivamente, subjetivamente informada por seus membros, na qual as necessidades individuais e familiares interagem (Zuna *et al*, 2010) que destaca a satisfação das necessidades da família, o prazer da vida familiar e se os membros da família têm a oportunidade de fazer as coisas que são importantes para os mesmos (Vanderkerken *et al*, 2018; Boehm *et al*, 2019; Droogmans *et al*, 2021).

As necessidades de uma criança com deficiência influenciam não apenas os outros membros da família, mas também o sistema familiar como um todo. O conceito de QV da família visa descrever a QV de todos os membros da família, a QV do sistema familiar e as influências de uns sobre os outros (Moyson *et al*, 2012).

1.5 Qualidade de vida dos irmãos

Existem alguns subsistemas dentro de uma mesma família, como “pai-filho” e “criança-irmãos”. Em cada subsistema, dois ou mais membros da família se relacionam e influenciam um ao outro (Relva *et al*, 2019). Os impactos que os pais exercem sobre o desenvolvimento infantil são amplamente estudados. Em uma díade criança-irmão, ambos deveriam ser

relativamente iguais, no entanto, a prática dos pais é mais direcionada a um objetivo, onde os pais tendem a aplicar práticas diferentes que são consistentes com o seu próprio propósito (Stauffacher *et al*, 2006; Ong *et al*, 2018). Um aspecto importante na vida da criança e do adolescente é a percepção do tratamento diferenciado dos pais, aliás, mais do que a forma como os pais tratam seus filhos, parece ser mais importante a forma como isso é entendido pelos filhos (Relva *et al*, 2019).

O estresse associado a cuidar de crianças com doenças neurológicas é diferente de cuidar de crianças com outras condições crônicas (Duffy *et al*, 2016). Como resultado, o tempo restante de atenção dos pais fornecido para os irmãos é obviamente escasso e, mais importante, a qualidade do tempo dos pais com os irmãos é reduzida. Consequentemente, os irmãos podem se sentir solitários, ignorados, excluídos, negligenciados e rejeitados e vivenciar emoções como retraimento, agressividade, depressão, ansiedade, culpa e isolamento, resultando em baixo desempenho escolar e baixa autoestima (Murray, 1999; Van Riper, 2003; Wilkins *et al*, 2005; Bellin *et al*, 2006; Alderfer *et al*, 2010; O' Brien *et al*, 2009; Dinleyici *et al*, 2019).

A influência das crianças com deficiência sobre seus irmãos é modificada por vários fatores relacionados às características e à dinâmica de cada membro da família e da família como um todo. Portanto, conviver com uma criança com deficiência é considerado como fator de risco para impacto significativo na QV dos irmãos (Ravens-Sieberer *et al*, 1998; Wakimizu *et al*, 2020).

Com a crescente conscientização sobre o impacto significativo de um irmão no desenvolvimento do outro, e o potencial estresse e confusão de papéis que os irmãos podem vivenciar quando há uma doença crônica na família, é cada vez mais importante que as necessidades desses irmãos sejam consideradas e conhecidas (Marciano *et al*, 2005).

1.6 Sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral

Sobrecarga e QV dos cuidadores de crianças/adolescentes com PC são bem conhecidas e foram bem descritas na literatura. Tais dimensões foram avaliadas através de diferentes escalas e questionários em estudos realizados no exterior. As principais características destes estudos são descritas respectivamente nas tabelas 2 e 3. Alguns fatores de impacto relacionados aos cuidadores, à família e à criança com PC foram associados à sobrecarga e à QV dos cuidadores de crianças/adolescentes com PC nestes estudos. Tais fatores de impacto são

descritos respectivamente nos Quadros 1 e 2. Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores.

Tabela 2 - Principais características dos estudos relacionados à sobrecarga dos cuidadores de crianças e adolescentes com paralisia cerebral

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Camargos <i>et al</i>	2009	Brasil	56 cuidadores	Burden Interview
Ferreira <i>et al</i>	2015	Brasil	31 cuidadores	Burden Interview
Wijesinghe <i>et al</i>	2015	Sri Lanka	375 cuidadores	Caregiver Difficulties Scale
Ozkan <i>et al</i>	2018	Turquia	120 cuidadores	Burden Interview
Souza <i>et al</i>	2018	Brasil	38 cuidadores	Burden Interview
Chávez Andrade	2020	Colômbia	117 cuidadores	Burden Interview
Yığman <i>et al</i>	2020	Turquia	144 cuidadores	Burden Interview
Barutcu <i>et al</i>	2021	Turquia	109 cuidadores	Burden Interview
Gugala	2021	Polônia	190 cuidadores	Caregiver Burden Scale
Nunes <i>et al</i>	2021	Brasil	5 cuidadores	Burden Interview

Quadro 1 – Fatores de impacto na sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral

Relacionados aos cuidadores

- Altos níveis de ansiedade e de depressão (Souza *et al*, 2014; Gugala, 2021);
- Idade mais avançada (Barutcu *et al*, 2021);
- Separados, divorciados ou viúvos (Chávez Andrade, 2021);
- Ensino médio incompleto (Chávez Andrade, 2021);
- Pouco apoio do cônjuge (Wijesinghe *et al*, 2015);
- QV nos domínios limitação por aspectos físicos, dor, vitalidade e limitação por aspectos sociais (Ferreira *et al*, 2015).

Relacionados à família

- Menor nível socioeconômico (Camargos *et al*, 2009; Wijesinghe *et al*, 2015);

Relacionados à criança com PC

- Menor gravidade nos déficits funcionais (Camargos *et al*, 2009);
- Maior gravidade nos déficits funcionais (Wijesinghe *et al*, 2015; Ozkan, 2018; Nunes *et al*, 2021);
- Capacidade de comunicação reduzida (Yığman *et al*, 2020).
- Níveis reduzidos de QV (Ozkan, 2018).

Legendas: paralisia cerebral (PC); qualidade de vida (QV).

Além destes fatores, Vadivelan *et al* (2020) realizaram estudo qualitativo com entrevistas com mães de crianças com PC. No nível individual as mães relataram dores devido à atividade física intensa no cuidar e sofriam de um sentimento de culpa sobre a condição da criança. Devido à dificuldade em conciliar família e trabalho, referiram prejuízos financeiros significativos. Também perceberam falta de conhecimento e conscientização sobre as possíveis opções para tratamentos de seus filhos. No nível interpessoal, as mães careciam de apoio do marido e da família no processo do cuidar, tiveram que comprometer os cuidados que prestavam aos demais familiares e aos seus filhos saudáveis. As mães não tinham apoio dos membros da comunidade e se sentiam isoladas dos outros. Os estressores ambientais, como a falta de espaços públicos inclusivos, a falta de opções de transporte público e os horários de trabalho, foram as principais fontes de sobrecarga. Os autores concluíram que os cuidadores de crianças com PC tiveram encargos únicos em um cenário típico de baixa e média renda, incluindo uma intersecção de normas de gênero, pobreza, estigmatização e políticas públicas não inclusivas.

Tabela 3 - Principais características dos estudos relacionados à qualidade de vida dos cuidadores de crianças e adolescentes com paralisia cerebral

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Zanon <i>et al</i>	2012	Brasil	82 cuidadores	Medical Outcomes Study 36 – Item Short-Form Health Survey
Tseng <i>et al</i>	2016	Taiwan	167 cuidadores	World Health Organization Quality of Life-BREF-Taiwan version
Lee	2019	Coréia do sul	180 cuidadores	World Health Organization's Quality of Life Questionnaire
Farajzadeh <i>et al</i>	2020	Irã	203 cuidadores	World Health Organization's Quality of Life Questionnaire
Sonune <i>et al</i>	2021	Índia	203 cuidadores	World Health Organization's Quality of Life Questionnaire

Quadro 2 – Fatores de impacto na qualidade de vida dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral (continua)

Relacionados aos cuidadores

- Altos níveis de ansiedade e de depressão (Zanon *et al*, 2012; Tseng *et al*, 2016; Farajzadeh *et al*, 2020; Sonune *et al*, 2021);
- Estresse parental (Tseng *et al*, 2016; Lee *et al*, 2019);
- Prejuízos na saúde física (Lee *et al*, 2019; Farajzadeh *et al*, 2020);

Quadro 2 – Fatores de impacto na qualidade de vida dos cuidadores de crianças/adolescentes com paralisia cerebral (continuação)

Relacionados à família

- Níveis reduzidos de resiliência (Tseng *et al*, 2016);
- Apoio social reduzido (Lee *et al*, 2019).

Relacionados à criança com PC

- Maior gravidade nos déficits funcionais (Farajzadeh *et al*, 2020; Sonune *et al*, 2021);
- Maior tempo de incapacidade (Lee *et al*, 2019);
- Maiores problemas emocionais (Tseng *et al*, 2016);
- Ausência de apoio escolar adequado (Tseng *et al*, 2016);

Legendas: paralisia cerebral (PC).

1.7 Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral

Na busca por estudos relacionados a QV da família de crianças e adolescentes com PC na literatura, a grande maioria dos artigos que emergem trata da QV de pais/cuidadores, como mostrado no quadro 2. Sem dúvida, a QV dos pais/cuidadores é influenciada pelo cuidado da criança ou adolescente com PC.

No entanto, o conceito de QV da família envolve o sistema familiar como um todo, onde as necessidades individuais e familiares interagem. Este construto deve ser definido e informado por todos os membros da família, e não apenas pelos pais/cuidadores.

Foram encontrados alguns estudos realizados no exterior, especificamente relacionados a QV da família de crianças e adolescentes com PC. Tais estudos utilizaram diferentes instrumentos para avaliação e chegaram a diferentes resultados. As principais características destes estudos são descritas na tabela 4 e os principais resultados são resumidos no quadro 3. Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores.

Tabela 4 - Principais características dos estudos especificamente relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (continua)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Magill-Evans <i>et al</i>	2001	Canadá	90 famílias	Family Assessment Device
Dobhal <i>et al</i>	2014	Índia	100 famílias	Lifestyle Assessment Questionnaire – Cerebral Palsy

Tabela 4 - Principais características dos estudos especificamente relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (continuação)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Schertz <i>et al</i>	2016	Israel	12 famílias	Family Quality of Life Scale
Glinac <i>et al</i>	2017	Bósnia e Herzegovina	71 famílias	Pediatric Quality of Life Inventory 2.0 Family Impact Mode
Kołtuniuk <i>et al</i>	2019	Polônia	100 famílias	Pediatric Quality of Life Inventory Family Impact Module
Ying K <i>et al</i>	2021	Malásia	159 famílias	Pediatric Quality of Life Inventory Family Impact Module
Ljubičić <i>et al</i>	2022	Croácia	20 famílias	Family Quality of Life Scale
Sogbossi <i>et al</i>	2021	Benin	88 famílias	Impact on Family Scale

Quadro 3 – Resultados de estudos relacionados à qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com paralisia cerebral (continua)

Magill-Evans et al (2001)

- Houve poucas diferenças no funcionamento familiar, na satisfação com a vida e no suporte social percebido entre os grupos de famílias de adolescentes com PC e de adolescentes sem deficiência física.

Dobhal et al (2014)

- A QV das famílias de crianças e adolescentes com PC foi moderada a severamente afetada em dois terços da amostra.

Glinac et al (2017)

- Maior gravidade nos déficits funcionais e baixo nível educacional familiar foram fatores influenciadores respectivamente para pior e melhor QV da família.

Schertz et al (2016)

- As negociações dos domínios foram mais altas para relações familiares e mais baixas para bem-estar financeiro. Não houve diferença significativa no QV da família comparativamente aos controles.

Kołtuniuk, et al (2019)

- Pais em união estável, residentes na cidade e com formação profissional caracterizaram-se por maior nível de satisfação com a vida dos demais grupos.

Ying K et al (2021)

- A escolaridade da mãe, a renda mensal familiar, transtornos do sono nas crianças com PC e a existência de crianças com outros tipos de deficiência foram identificados como fatores que interferiram na QV e no funcionamento familiar.

Quadro 3 – Resultados de estudos relacionados à qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com paralisia cerebral (continuação)

Ljubičić et al (2022)

- A QV da família significativamente pior na amostra PC em relação aos controles tanto na pontuação total e nos domínios interação familiar, parentagem, bem-estar emocional, bem-estar físico/material e suporte ao familiar com deficiência.

Sogbossi et al (2021)

- Elevados impactos na QV familiar.

1.8 Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral

Estudos relacionados a qualquer dimensão de vida de irmãos de crianças e adolescentes com PC, incluindo a QV dos irmãos de crianças e adolescentes com PC, são escassos na literatura.

Rehn *et al* (1990) usando duas amostras paralelas, evidenciaram através de análises dos dados de testes psicométricos e de entrevistas, que irmãos de crianças alemãs com PC tinham prejuízo psicológico comparativamente aos irmãos de crianças saudáveis do grupo controle.

Dallas *et al* (1993) produziram dois artigos em que estudaram uma mesma população de díades de irmãos saudáveis e de crianças e adolescentes norte-americanos com PC. Comparadas às díades de controle de irmãos saudáveis, as crianças com PC eram passivas e carentes de assertividade, enquanto seus irmãos eram correspondentemente mais diretivos. A interação nas díades com crianças com PC era predominantemente hierárquica por natureza, com as crianças com PC assumindo o papel da criança mais nova, independentemente da idade ou da ordem de nascimento. As díades de controle eram mais igualitárias, com os membros se revezando para iniciar a interação. A intervenção materna foi maior nas díades com crianças com PC, particularmente entre os grupos mais jovens, onde as habilidades sociais eram pouco desenvolvidas. A organização hierárquica permitiu que as díades com crianças com PC funcionassem de forma eficaz, porém os irmãos não conseguiam vivenciar os desafios frequentes e o estilo de interação próximo e recíproco desenvolvido pelas díades de controle.

No estudo de Freeborn *et al* (2014) com mulheres norte-americanas com PC, o objetivo da análise foi examinar as percepções das maneiras pelas quais as famílias e membros individuais da família contribuíram para a QV geral dos participantes e para a adaptação à PC. Os irmãos eram importantes para todos, exceto para uma participante. Os relacionamentos entre

irmãos foram especialmente importantes porque os participantes se sentiram compreendidos e valorizados por alguém que não fosse um dos pais. Relações importantes entre irmãos continuaram na idade adulta e forneceram aos participantes um amplo sistema de apoio.

Levy-Zaks *et al* (2014) avaliaram os padrões comportamentais de 18 crianças israelenses com PC e de 16 irmãos. As crianças com PC demonstraram mais sintomas emocionais e comportamentais (depressão, ansiedade e problemas sociais, de pensamento e de atenção). Porém, uma análise dos irmãos demonstrou que estes também foram classificados abaixo das normas em relação aos seus pares.

Fejes *et al* (2021) estudaram a QV de 99 crianças e adolescentes húngaras com PC e encontraram nos irmãos destas crianças uma prevalência de doença mental 5.7 vezes mais alta do que na população geral do país.

Dogbe *et al* (2022) desenvolveram pesquisa qualitativa com o objetivo de analisar o relacionamento entre crianças com PC e seus irmãos com desenvolvimento típico. Os resultados revelaram que crianças com desenvolvimento típico aceitavam seus irmãos com PC como iguais e até assumiam responsabilidades domésticas para diminuir a sobrecarga sobre seus pais.

Em nossa pesquisa de revisão, não foram encontradas escalas específicas para mensurar a QV dos irmãos de crianças e adolescentes com PC, e emergiram apenas três estudos relacionados à QV dos irmãos de crianças e adolescentes com PC (principais características descritas na tabela 5).

Aran *et al* (2007) descreveram escores médios de QV mais baixos em irmãos de crianças com PC do que em pares da mesma idade em Israel. Rana *et al* (2015) correlacionaram a QV dos irmãos com a de seus irmãos com PC na Índia, mas a QV dos irmãos não foi comparada com a de crianças com desenvolvimento típico. Dinleyici *et al* (2020) também encontraram QV dos irmãos com PC significativamente pior do que a dos controles na Turquia. Nenhum destes artigos estudou as associações entre QV da família, sobrecarga dos cuidadores e QV dos irmãos.

Tabela 5 - Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (continua)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Aran <i>et al</i>	2007	Israel	39 irmãos	Child Health Questionnaire
Rana <i>et al</i>	2014	Índia	18 irmãos	World Health Organization's Quality of Life Questionnaire

Tabela 5 - Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (continuação)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Dinleyici <i>et al</i>	2020	Turquia	26 irmãos	Pediatric Quality of Life Inventory 4.0

1.9 Sobrecarga dos cuidadores de crianças/adolescentes com mielomeningocele

Diferentes aspectos da vida dos cuidadores são afetados por cuidar de uma criança com MMC, incluindo atividades da vida diária, impacto no trabalho, consumo de tempo, responsabilidades parentais, confiança, sentimentos e emoções, saúde mental, estresse, impacto social, ajustamento psicológico e relacionamentos (Rofail *et al*, 2012). Alguns estudos avaliaram sobrecarga e QV dos cuidadores de crianças/adolescentes com MMC. Tais dimensões foram avaliadas através de diferentes escalas e questionários. As principais características destes estudos são descritas na tabela 6. Alguns fatores de impacto relacionados aos cuidadores e à criança com MMC foram associados à sobrecarga e à QV dos cuidadores de crianças/adolescentes com MMC nestes estudos. Tais fatores de impacto são descritos respectivamente nos quadros 4 e 5. Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores.

Tabela 6 - Principais características dos estudos relacionados à sobrecarga e à qualidade de vida dos cuidadores de crianças e adolescentes com mielomeningocele

Autores	Ano	País	Amostra	Dimensão	Instrumento
Valença <i>et al</i>	2012	Brasil	43 cuidadores	Sobrecarga e QV	Caregiver Burden Scale e Short Form-36 Survey
Cavalari <i>et al</i>	2017	Brasil	26 cuidadores	Sobrecarga	Caregiver Burden Scale
Buoro <i>et al</i>	2020	Brasil	124 cuidadores	Sobrecarga e QV	Burden Interview e World Health Organization Quality of Life-BREF

Legendas: qualidade de vida (QV).

Quadro 4 – Fatores de impacto na sobrecarga do cuidador da criança/adolescente com mielomeningocele (continua)

Relacionados aos cuidadores

- Altos níveis de ansiedade e de depressão (Valença *et al*, 2012);
- Baixa renda e desemprego (Valença *et al*, 2012);

Quadro 4 – Fatores de impacto na sobrecarga do cuidador da criança/adolescente com mielomeningocele (continuação)

- Sobrecarga de trabalho (Buoro *et al*, 2020);

Relacionados à criança com mielomeingocele

- Necessidade do cateterismo vesical intermitente (Buoro *et al*, 2020);

- Presença de incontinência fecal (Valença *et al*, 2012);

- Necessidade de ajuda para os cuidados gerais (Buoro *et al*, 2020);

- Acessibilidade (Buoro *et al*, 2020).

Quadro 5 – Fatores de impacto na qualidade de vida do cuidador da criança/adolescente com mielomeningocele

Relacionados aos cuidadores

- Altos níveis de ansiedade e de depressão (Valença *et al*, 2012);

- Saúde física (Valença *et al*, 2012);

- Participação e oportunidades para recreação/lazer (Buoro *et al*, 2020);

- Sono e descanso (Buoro *et al*, 2020);

- Impacto financeiro (Buoro *et al*, 2020).

1.10 Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele

Dois estudos analisaram algumas questões sobre o funcionamento familiar, mas não especificamente sobre a QV da família (Holmbeck *et al*, 2002; Simpson *et al*, 2022). Alguns autores efetivamente estudaram a QV da família na meningomielocele usando diferentes escalas, com resultados variados (Nicolais *et al*, 2016; Spaulding e Morgan, 1986; Wiegner e Donders, 2000) (tabela 7). Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores.

Tabela 7 - Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele (continua)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Spaulding e Morgan	1986	EUA	19 famílias	Family Environment Scale
Wiegner e Donders	2000	EUA	60 famílias de crianças com PC; 34 famílias de crianças com MMC e 27 famílias de crianças com deficiências nos membros	Family Assessment Device

Tabela 7 - Principais características dos estudos relacionados a qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele (continuação)

Autores	Ano	País	Amostra	Instrumento
Holmbeck <i>et al</i>	2002	EUA	68 famílias	Family Environment Scale
van't Veer <i>et al</i>	2008	Quênia	40 famílias	Questionário próprio elaborado para o estudo
Nicolais <i>et al</i>	2016	Colômbia	8 famílias de crianças com lesões medulares adquiridas e 22 famílias de crianças com MMC	Family Assessment Device
Simpson	2022	EUA	209 famílias	Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL) 4.0 Generic Core Scales and Family Impact Modules.

Legendas: mielomeningocele (MMC); paralisia cerebral (PC).

1.11 Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele

Como observado na PC, estudos relacionados a qualquer dimensão de vida de irmãos de crianças e adolescentes com MMC, incluindo a QV dos irmãos de crianças e adolescentes com MMC, são escassos na literatura. A Tabela 8 mostra as características dos três estudos encontrados referentes a dimensões de vida de irmãos de crianças e adolescentes com MMC.

Tabela 8 - Principais características dos estudos relacionados a dimensões de vida de irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele (continua)

Autores	Ano	País	Amostra	Dimensão	Fatores de impacto
Kiburz	1994	EUA	19 famílias	Percepções e preocupações dos irmãos	Alto nível de empatia e preocupação com seus irmãos com MMC
Belin <i>et al</i>	2009	EUA	224 irmãos	Ajustamento dos irmãos (autoconceito, comportamento social e problemas de comportamento)	Maior satisfação com a família, maior apoio social
Belin e Rice	2009	EUA	224 irmãos	Ajustamento dos irmãos (satisfação com o funcionamento familiar, cordialidade e conflito em seus relacionamentos com irmãos e com MMC)	Maior satisfação com a família

Legendas: mielomeningocele (MMC).

Na pesquisa bibliográfica realizada para este estudo, não foram encontradas referências à QV dos irmãos de crianças e adolescentes com MMC.

2 OBJETIVOS

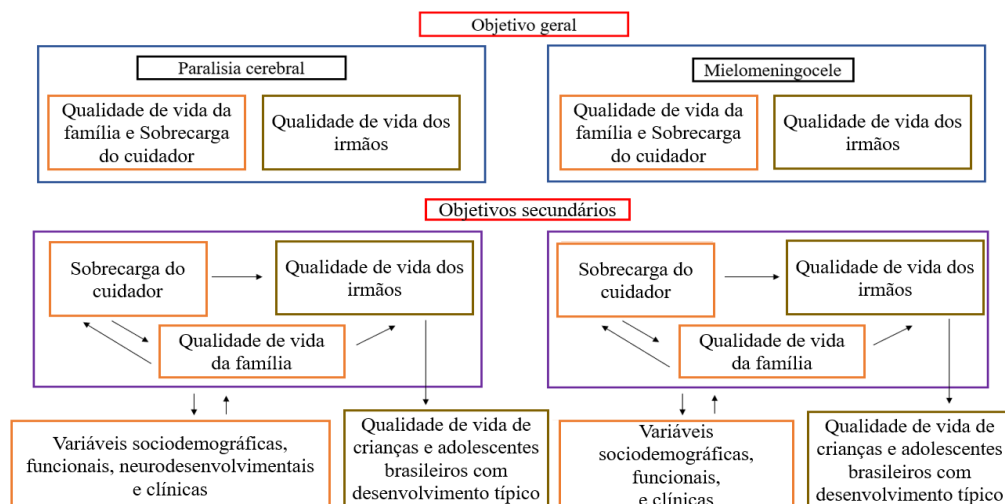
2.1 Objetivo geral

- Caracterizar separadamente sobrecarga do cuidador, QV da família e QV dos irmãos de crianças e adolescentes com PC e com MMC.

2.2 Objetivos secundários

- Verificar as correlações entre QV da família, sobrecarga do cuidador e QV dos irmãos na PC.
- Verificar as correlações entre QV da família, sobrecarga do cuidador e QV dos irmãos na PC com variáveis sociodemográficas, funcionais, neurodesenvolvimentais e clínicas.
- Verificar a QV dos irmãos na PC, tendo como parâmetro a QV de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.
- Verificar as correlações entre QV da família, sobrecarga do cuidador e QV dos irmãos na MMC.
- Verificar as correlações entre QV da família, sobrecarga do cuidador e QV dos irmãos na MMC com variáveis sociodemográficas, funcionais e clínicas.
- Verificar a QV dos irmãos na MMC, tendo como parâmetro a QV de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.

Figura 4 - Representação esquemática do objetivo geral e dos objetivos secundários



Fonte: O autor, 2024.

3 MÉTODOS

3.1 Desenho do estudo

Foi realizado estudo transversal.

Como não temos disponíveis na literatura dados confiáveis sobre a prevalência da PC e da MMC no Brasil e na cidade do Rio de Janeiro, não foi possível realizar o cálculo amostral, e optamos por utilizar uma amostra de conveniência.

Os participantes foram recrutados de duas amostras: uma amostra de crianças e adolescentes com PC e outra de crianças e adolescentes com MMC consecutivamente acompanhados entre novembro de 2021 e novembro de 2022 no Setor de Reabilitação Infantil do Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências (unidade da Rede SARAH de Hospitais de Reabilitação no Rio de Janeiro).

3.2 Critérios de inclusão

Foram definidos como critérios de inclusão:

- a) famílias de crianças e adolescentes com PC com idade entre 2 e 16 anos com irmãos com desenvolvimento típico com idade entre 10 e 15 anos.
- b) famílias de crianças e adolescentes com MMC com idade entre 2 e 16 anos com irmãos com desenvolvimento típico com idade entre 10 e 15 anos.
- c) acompanhamento no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências (unidade da Rede SARAH de Hospitais de Reabilitação no Rio de Janeiro).

A faixa etária dos pacientes foi escolhida para que pudéssemos definir claramente a classificação funcional de cada um deles. A faixa etária dos irmãos foi escolhida de forma que correspondesse exatamente à faixa etária da amostra de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico cuja QV seria utilizada como parâmetro.

3.3 Critérios de exclusão

Foram definidos como critérios de exclusão:

- a) descontinuidade do acompanhamento no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências durante o período de coleta de dados por três ou mais faltas consecutivas aos atendimentos previamente agendados.

b) famílias e irmãos que não entregassem de volta para o pesquisador os instrumentos preenchidos para mensuração da QV familiar, sobrecarga do cuidador, QV dos irmãos e classificação econômica familiar.

3.4 Coleta dos dados

Foi seguido um protocolo estruturado pré-estabelecido. Os responsáveis legais e os irmãos dos pacientes foram abordados pelo pesquisador em atendimentos previamente agendados no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências. Os objetivos do estudo foram explicados. Os responsáveis legais e os irmãos preencheram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido – TCLE (Apêndice A) e o Termo de Assentimento Livre e Esclarecido - TALE (Apêndice B), para a pesquisa e para a publicação dos resultados. Famílias, cuidadores e irmãos preencheram os instrumentos de mensuração de QV familiar, sobrecarga do cuidador, QV dos irmãos e classificação econômica familiar em seus domicílios e os devolveram ao pesquisador em um próximo atendimento previamente agendado na instituição. Foram incluídas 212 famílias e 131 irmãos na amostra PC e 150 famílias e 68 irmãos na amostra MMC. Todas as famílias e todos os irmãos devolveram os questionários preenchidos.

Outros dados demográficos, funcionais, intelectuais e clínicos dos pacientes e dados sociodemográficos dos familiares e dos irmãos foram coletados do prontuário eletrônico do paciente.

3.5 Instrumentos utilizados no estudo

3.5.1 Instrumento de aferição de sobrecarga - Burden Interview

A Burden Interview (Anexo A) é um instrumento criado para avaliar a sobrecarga dos cuidadores associada aos aspectos funcionais e comportamentais do paciente com deficiência. Seus 22 itens refletem as áreas de preocupação do entrevistado divididas em quatro fatores: Impacto da prestação de cuidados (com 11 itens); Relação interpessoal (com 5 itens); Expectativas com o cuidar (com 4 itens); e Percepção de autoeficácia (com 2 itens). Os itens medem a sobrecarga objetiva e subjetiva relatada pelo cuidador. A forma subjetiva em que os itens são escritos favorece a resposta emocional do cuidador. As respostas variam em cinco

níveis: 0 = nunca, 1 = raramente, 2 = algumas vezes, 3 = frequentemente, 4 = sempre. O último item da escala é geral, em que o respondente avalia o quanto ele/ela considera estar sobrecarregado devido ao seu papel de cuidador: 0 = nem um pouco, 1 = um pouco, 2 = moderadamente, 3 = muito, 4 = extremamente. A pontuação total é obtida por meio da soma de todos os itens, variando de zero a 88. Os níveis de sobrecarga podem ser classificados em Ausência de sobrecarga (≤ 21 pontos); Sobrecarga leve a moderada (22 - 40 pontos); Sobrecarga moderada a severa (41 – 60 pontos); e Sobrecarga severa (≥ 61 pontos) (Nunes *et al*, 2021). A Burden Interview é traduzida e adaptada para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Scazufca, 2002). É uma escala de domínio público que não demanda autorização para utilização.

3.5.2 Instrumentos de aferição de qualidade de vida

3.5.2.1 Instrumento de aferição de qualidade de vida da família - Family Quality of Life Scale

A Family Quality of Life Scale (Anexo B) foi elaborada com os objetivos de avaliar a QV em famílias que possuem filhos com diversas deficiências e de auxiliar os profissionais da saúde. Tal elaboração passou por modificações até ser finalizada com cinco domínios, totalizando 25 itens: Interação familiar (com 6 itens); Cuidados dos pais com os filhos (com 6 itens); Bem-estar emocional (com 4 itens); Bem-estar físico/material (com 5 itens); e Apoio ao deficiente (com 4 itens). As respostas variam em cinco níveis: 1 = muito insatisfeito, 2 = insatisfeito, 3 = indiferente, 4 = satisfeito, 5 = muito satisfeito. A pontuação total é obtida por meio da soma de todos os itens, variando de 25 a 125 (Hoffman *et al*, 2006; Jorge *et al*, 2015). Os níveis de satisfação podem ser classificados em Muito insatisfeito (25-44 pontos); Insatisfeito (45-64 pontos); Indiferente (65–84 pontos); Satisfeito (85-104 pontos); e Muito satisfeito (105-125 pontos). A Family Quality of Life Scale é traduzida e adaptada para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Anexo B) (Jorge *et al*, 2015). Foi solicitada a autorização dos autores da tradução e adaptação no Brasil para uso da Family Quality of Life Scale neste estudo (Anexo C).

3.5.2.2 Instrumentos de aferição de qualidade de vida dos irmãos - KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version / Parent Version

O KIDSCREEN (versão com 52, 27 e 10 itens) foi criado com o objetivo de mensurar a QV em crianças e adolescentes de 8 a 18 anos, com versões tanto para a criança/adolescente (Child and Adolescent Version - Anexo D), quanto para os pais (Parent Version - Anexo E) (Ravens-Sieberer *et al*, 2005; Ravens-Sieberer *et al*, 2010). A versão longa do KIDSCREEN contém 52 itens, distribuídos em 10 domínios (Ravens-Sieberer *et al*, 2007), e sua validade já foi amplamente avaliada em crianças e adolescentes de diferentes continentes (Robitail *et al*, 2007; Guedes *et al*, 2011), tendo alcançado níveis satisfatórios de fidedignidade e validade. Entretanto, a utilização do KIDSCREEN-52 em estudos epidemiológicos, com grande número de pessoas e de variáveis a serem mensuradas, torna-se praticamente inviável devido ao elevado número de itens que deverão ser respondidos. Nesse sentido, o KIDSCREEN com 27 itens foi desenvolvido para atender a essa finalidade. Essa versão considera os principais domínios ligados à QV e compreende 27 dos 52 itens da versão longa, distribuídos em cinco domínios: Saúde e bem-estar físico (5 itens); Bem-estar psicológico (7 itens); Autonomia e relação com os pais (7 itens); Suporte social e grupo de pares (4 itens); Ambiente escolar (4 itens). Os 27 itens têm cinco opções de respostas de acordo com a intensidade (nada, pouco, moderadamente, muito, totalmente) e frequência (nunca, raramente, às vezes, frequentemente, sempre), com período de recordação de 1 semana. As pontuações são codificadas de 1 a 5 e os itens formulados com categorias negativas de resposta (1, 9, 10 e 11) são invertidas para seguirem a mesma direção dos itens formulados positivamente. O KIDSCREEN-27 é traduzido e adaptado para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Farias Júnior *et al*, 2017). Foi solicitada a autorização dos autores do KIDSCREEN para uso do KIDSCREEN-27 neste estudo (Anexo F).

3.5.3 Instrumentos de classificação funcional

3.5.3.1 Instrumentos de classificação funcional na paralisia cerebral

3.5.3.1.1 Gross Motor Function Classification System

O Gross Motor Function Classification System (GMFCS – Anexo G) se baseia no movimento iniciado voluntariamente, sendo organizado em cinco níveis (I; II; III; IV; V) crescentes em dificuldades. As descrições dos cinco níveis são amplas e não pretendem descrever todos os aspectos da função de cada criança. Para cada nível são fornecidas descrições separadas para crianças em diferentes faixas etárias. O GMFCS é traduzido e adaptado para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Hiratuka *et al*, 2010).

3.5.3.1.2 Eating and Drinking Ability Classification System

O Eating and Drinking Ability Classification System (EDACS – Anexo H) descreve a capacidade funcional de comer e de beber em pessoas com PC. O EDACS identifica as principais características de segurança e eficiência ligadas às limitações das habilidades orais necessárias para morder, mastigar e engolir. Os cinco níveis distintos decrescentes de habilidade (I; II; III; IV; V) incluem informações sobre mordedura, mastigação e capacidade de engolir alimentos e fluidos, alterações respiratórias associadas a comer e/ou beber e risco devido a aspiração ou engasgo (Sellers *et al*, 2014). O EDACS é traduzido e adaptado para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Silvério *et al*, 2022).

3.5.3.2 Instrumento de classificação funcional na mielomeningocele - Critérios de Hoffer

Hoffer *et al* (1973) criaram a classificação funcional da deambulação (Anexo I), dividindo os pacientes em quatro grupos:

Grupo 1 - Deambuladores comunitários: estes pacientes deambulam dentro e fora de casa para a maioria de suas atividades, podendo necessitar do auxílio de órteses ou muletas, ou ambos.

Usam cadeira de rodas para o deslocamento de longas distâncias ou viagens fora da comunidade. Distância percorrida de deambulação – 610 metros;

Grupo 2 - Deambuladores domiciliares: estes pacientes deambulam somente dentro de casa e com órteses. São capazes de subir e sair da cadeira de rodas e da cama com pequena ou nenhuma ajuda. Em geral são independentes nas atividades de vida diária, praticamente sem nenhuma assistência. Usam cadeira de rodas para algumas atividades dentro de casa e na escola e para todas as atividades na comunidade. Distância percorrida – 30 metros;

Grupo 3 - Deambuladores não funcionais: estes pacientes deambulam durante a sessão de terapia em casa, na escola, ou no hospital. A deambulação para estes pacientes é usada somente como terapia. Usam cadeira de rodas como meio de transporte para qualquer outra atividade. Distância percorrida- é menor que 3 metros;

Grupo 4 - Não deambuladores: estes pacientes só se movimentam através da cadeira de rodas, e usualmente podem fazer a transferência da cadeira de rodas para a cama.

3.5.4 Instrumento de avaliação da capacidade intelectual na paralisia cerebral - Vineland Adaptive Behavior Scales

A Vineland Adaptive Behavior Scales (VABS) (Anexo J) é o instrumento mais validado para o funcionamento adaptativo após patologia cerebral em crianças em países de baixa e média renda. A VABS é traduzida e adaptada para a língua portuguesa falada no Brasil e para a cultura brasileira (Kusi-Mensah *et al*, 2022).

3.5.5 Instrumento de classificação de classe econômica familiar - Critério Brasil da Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa

A metodologia de desenvolvimento do Critério Brasil da Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa (Anexo K) entrou em vigor no início de 2015 e está descrita no livro *Estratificação Socioeconômica e Consumo no Brasil* (Wagner Kamakura e José Afonso

Mazzon), baseado na Pesquisa de Orçamento Familiar do Instituto Brasileiro de Geografia e Estatística. É utilizado um sistema de pontuação que leva em consideração condições de moradia, bens de consumo, grau de instrução do chefe da família e acesso a serviços públicos. A soma deste sistema de pontuação classifica a família em classes econômicas A, B1, B2, C1, C2, D e E (<https://www.abep.org/criterio-brasil>, 2021).

3.6 Definição das variáveis

3.6.1 Variáveis sociodemográficas

- Idade da criança/adolescente com PC ou com MMC: idade em anos.
- Sexo da criança/adolescente com PC ou com MMC: masculino / feminino.
- Composição familiar: dois responsáveis legais / um responsável legal.
- Classe econômica familiar: baixa renda (classe econômica familiar C ou D/E) / alta renda (classe econômica familiar A ou B).
- Maior nível de escolaridade familiar: baixa escolaridade (analfabeto até ensino médio incompleto) / alta escolaridade (ensino médio até graduação completa).

3.6.2 Variáveis funcionais da criança/adolescente com paralisia cerebral

- Capacidade motora grosseira: baixo impacto na capacidade motora grosseira (GMFCS I, II, III) / alto impacto na capacidade motora grosseira (GMFCS IV e V);
- Capacidade de deglutição: baixo impacto na capacidade de deglutição (EDACS I, II, III) / alto impacto na capacidade de deglutição (EDACS IV e V);

3.6.3 Variável do neurodesenvolvimento da criança/adolescente com paralisia cerebral

- Definida como impacto na capacidade intelectual (atraso global do desenvolvimento ou deficiência intelectual) ausente / presente.
- Atraso global do desenvolvimento (AGD): definido como fracasso em atingir os marcos do desenvolvimento esperado em várias áreas da função intelectual, sendo aplicado a pessoas que

não são capazes de passar por avaliações sistemáticas do funcionamento intelectual, incluindo crianças jovens demais para participar de testes padronizados. Terminologia reservada a indivíduos com menos de 5 anos de idade, quando o nível de gravidade clínica não pode ser avaliado de modo confiável durante a primeira infância (American Psychiatric Association, 2014). A aferição do neurodesenvolvimento para definição de AGD foi realizada através da aplicação da escala VABS.

- Deficiência intelectual (DI): definida como transtorno com início no período do desenvolvimento que inclui déficits funcionais, tanto intelectuais quanto adaptativos, nos domínios conceitual, social e prático (American Psychiatric Association, 2014). A aferição do neurodesenvolvimento para definição de DI foi realizada através da aplicação da escala VABS.

3.6.4 Variável clínica da criança/adolescente com paralisia cerebral

- Definida como epilepsia ausente / presente.

- Epilepsia definida do ponto de vista clínico e prático pela International League Against Epilepsy como uma doença do cérebro caracterizada por qualquer uma das seguintes condições: (1) pelo menos duas crises epiléticas não provocadas (ou reflexas) ocorrendo em um intervalo superior a 24 horas; (2) uma crise epilética não provocada (ou reflexa) e a probabilidade de ocorrência de crises epiléticas similar ao risco de recorrência em geral (de pelo menos 60%) após duas crises epiléticas não provocadas, ocorrendo nos próximos 10 anos; (3) diagnóstico de uma síndrome epilética (Fisher *et al*, 2014).

3.6.5 Variável funcional da criança/adolescente com mielomeningocele

- Capacidade motora grosseira: baixo impacto na capacidade motora grosseira (Hoffer 1 e 2) / alto impacto na capacidade motora grosseira (Hoffer 3 e 4).

3.6.6 Variáveis clínicas da criança/adolescente com mielomeningocele

- Necessidade da realização do cateterismo vesical intermitente limpo (CVIL) ausente / presente.

- Incontinência fecal definida como a perda de fezes em locais inadequados ao contexto social pelo menos uma vez (Rasquin *et al*, 2006; Koppen *et al*, 2016) ausente / presente.

3.6.7 Variável de sobrecarga do cuidador

- Definida pela pontuação total na Burden Interview: baixa sobrecarga (sobrecarga ausente e leve a moderada) / alta sobrecarga (sobrecarga moderada a severa e severa).

3.6.8 Variável de satisfação com a qualidade de vida da família

- Definida pela pontuação total na Family Quality of Life Scale: baixa satisfação (muito insatisfeito, insatisfeito e indiferente) / alta satisfação (satisfeito e muito satisfeito).

3.6.9 Qualidade de vida de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico

- Amostra de crianças/adolescentes, com desenvolvimento típico, com idades entre 10 e 15 anos, submetidos a avaliação da QV através do KIDSCREEN-27 para reprodutibilidade, consistência interna e validade de construto do KIDSCREEN-27 em crianças e adolescentes brasileiros no estudo de Farias Júnior *et al* (2017).

3.6.10 Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele

- Definida pelas pontuações totais na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN-27 Parent Version.

3.7 Protocolos de coleta dos dados

As famílias e os irmãos tiveram anotados nos seus respectivos protocolos de coleta de dados (Apêndices C, D, E e F), número do protocolo e as seguintes variáveis:

3.7.1 Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (Apêndice C)

- a) Idade da criança / adolescente com PC;
- b) Sexo da criança / adolescente com PC;
- c) Composição familiar com dois responsáveis legais ou um responsável legal;
- d) Classe econômica familiar com baixa renda ou alta renda;
- e) Maior nível de escolaridade familiar com baixa escolaridade ou alta escolaridade;
- e) GMFCS da criança / adolescente com PC com baixo impacto na capacidade motora grosseira ou alto impacto na capacidade motora grosseira;
- f) EDACS da criança / adolescente com PC com baixo impacto na capacidade de deglutição ou alto impacto na capacidade de deglutição;
- g) Impacto na capacidade intelectual (AGD ou DI) na criança / adolescente com PC ausente ou presente;
- h) Epilepsia na criança / adolescente com PC ausente ou presente;
- i) Pontuação total na Burden Interview com baixa sobrecarga ou alta sobrecarga;
- j) Pontuação total na Family Quality of Life Scale com baixa satisfação ou alta satisfação.

3.7.2 Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral (Apêndice D)

- a) Idade do irmão da criança / adolescente com PC;
- b) Idade da criança / adolescente com PC;
- c) Sexo do irmão da criança / adolescente com PC;
- d) Sexo da criança / adolescente com PC;
- e) Composição familiar com dois responsáveis legais ou um responsável legal;
- f) Classe econômica familiar com baixa renda ou alta renda;
- g) Maior nível de escolaridade familiar com baixa escolaridade ou alta escolaridade;
- h) GMFCS da criança / adolescente com PC com baixo impacto na capacidade motora grosseira ou alto impacto na capacidade motora grosseira;

- i) EDACS da criança / adolescente com PC com baixo impacto na capacidade de deglutição ou alto impacto na capacidade de deglutição;
- j) Impacto na capacidade intelectual (AGD ou DI) na criança / adolescente com PC ausente ou presente;
- k) Epilepsia na criança / adolescente com PC ausente ou presente;
- l) Pontuação total na Burden Interview com baixa sobrecarga ou alta sobrecarga;
- m) Pontuação total na Family Quality of Life Scale com baixa satisfação ou alta satisfação.
- n) Pontuação total na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version;
- o) Pontuação total na KIDSCREEN-27 Parent Version.

3.7.3 Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida das famílias de crianças e adolescentes com mielomeningocele (Apêndice E)

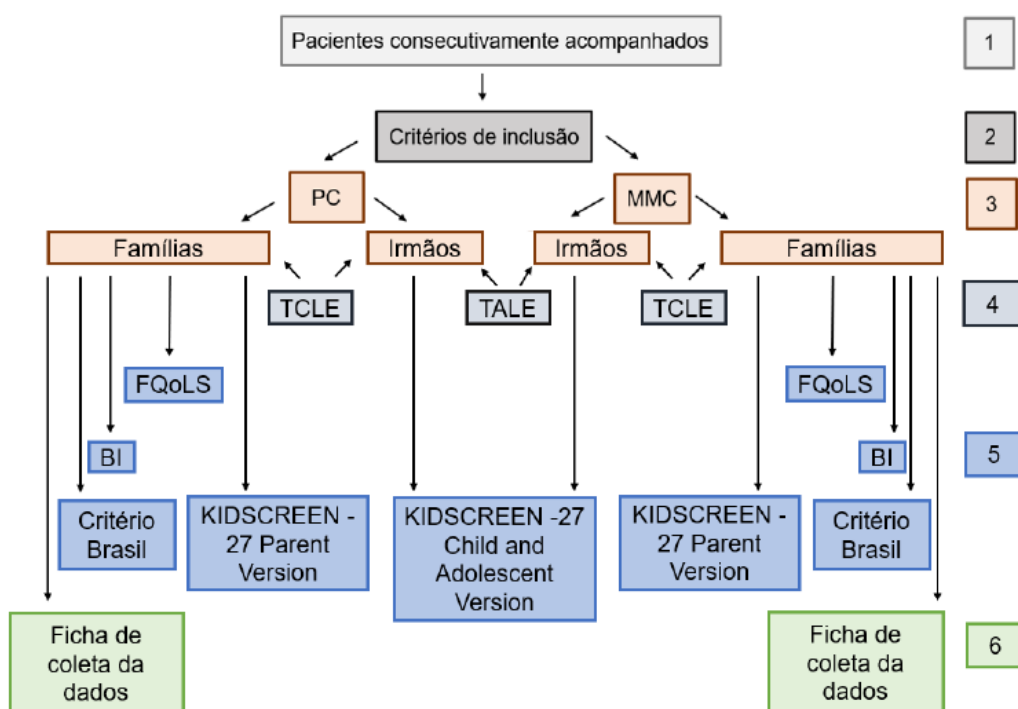
- a) Idade da criança / adolescente com MMC;
- b) Sexo da criança / adolescente com MMC;
- c) Composição familiar com 2 responsáveis legais ou 1 responsável legal;
- d) Classe econômica familiar com baixa renda ou alta renda;
- e) Maior nível de escolaridade familiar com baixa escolaridade ou alta escolaridade;
- f) Critérios de Hoffer da criança / adolescente com MMC com baixo impacto na capacidade motora grosseira ou alto impacto na capacidade motora grosseira;
- g) Necessidade da realização do CVIL na criança / adolescente com MMC ausente ou presente;
- h) Incontinência fecal na criança / adolescente com MMC ausente ou presente;
- i) Pontuação total na Burden Interview com baixa sobrecarga ou alta sobrecarga;
- j) Pontuação total na Family Quality of Life Scale com baixa satisfação ou alta satisfação.

3.7.4 Protocolo de coleta de dados – Qualidade de vida dos irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele (Apêndice F)

- a) Idade da criança / adolescente com MMC;
- b) Sexo da criança / adolescente com MMC;

- c) Composição familiar com dois responsáveis legais ou um responsável legal;
- d) Classe econômica familiar com baixa renda ou alta renda;
- e) Maior nível de escolaridade familiar com baixa escolaridade ou alta escolaridade;
- f) Critérios de Hoffer da criança / adolescente com MMC com baixo impacto na capacidade motora grosseira ou alto impacto na capacidade motora grosseira;
- g) Necessidade da realização do CVIL na criança / adolescente com MMC ausente ou presente;
- h) Incontinência fecal na criança / adolescente com MMC ausente ou presente;
- i) Pontuação total na Burden Interview com baixa sobrecarga ou alta sobrecarga;
- j) Pontuação total na Family Quality of Life Scale com baixa satisfação ou alta satisfação.
- k) Pontuação total na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version;
- l) Pontuação total na KIDSCREEN-27 Parent Version;

Figura 5 – Representação esquemática das etapas do estudo



Legendas: Burden Interview (BI); Family Quality of Life Scale (FQoLS); mielomeingocele (MMC); paralisia cerebral (PC); termo de assentimento livre e esclarecido (TALE); termo de consentimento livre e esclarecido (TCLE).

Fonte: O autor, 2024.

3.8 Análise estatística

Os dados foram resumidos usando média (desvio padrão [DP]) ou mediana (intervalo interquartil [IIQ]) para variáveis contínuas e frequência (porcentagem) para variáveis categóricas. Não houve dados faltantes. As distribuições das variáveis foram visualizadas e verificadas com gráficos de barras e violino.

Foram utilizados teste t (paramétrico) e Teste de Wilcoxon (não paramétrico) respectivamente para amostras com e sem distribuição normal nas seguintes comparações: (1) pontuações dos domínios e das pontuações totais na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre os irmãos de crianças / adolescentes com PC e crianças / adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico; (2) pontuações dos domínios e das pontuações totais na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN-27 Parent Version entre os irmãos de crianças / adolescentes com PC; (3) pontuações dos domínios e das pontuações totais na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre os irmãos de crianças / adolescentes com MMC e crianças / adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico; (4) pontuações dos domínios e das pontuações totais na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN-27 Parent Version entre os irmãos de crianças / adolescentes com MMC. Os tamanhos de efeito e os intervalos de confiança (IC) de 95% de cada uma dessas comparações foram calculados.

Modelos multivariados foram construídos para os escores totais de Family Quality of Life Scale, Burden Interview, KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e KIDSCREEN-27 Parent Version, separadamente nas amostras PC e MMC. Foram verificados linearidade, normalidade, colinearidade, autocorrelação e homocedasticidade. As estimativas foram apresentadas com IC de 95%. Valores de p bilaterais inferiores a 0.05 foram considerados significativos. Todas as análises estatísticas foram realizadas no Jamovi 2.3.16 (Jamovi, 2022). As diretrizes de relatórios STROBE foram seguidas.

3.9 Aspectos éticos

O projeto de pesquisa passou por avaliação pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Rede SARA de Hospitais de Reabilitação, sendo aprovado sob o Certificado de Apresentação de Certificação Ética (CAAE) 50381121.1.0000.0022 (Anexo L) e foi realizado de acordo com a resolução do Comitê de Ética em Pesquisa. Todas as famílias foram submetidas ao TCLE

(Apêndice A) e todos os irmãos foram submetidos ao TALE (Apêndice B). O anonimato e sigilo em relação às informações foram garantidos. A recusa em participar do estudo não comprometeu o atendimento e o acompanhamento na Rede SARA.

4 RESULTADOS

4.1 Amostra paralisia cerebral (resultados descritos no artigo “Quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy treated at a reference neurorehabilitation center in Brazil” – Apêndice G)

4.1.1 Dados sociodemográficos, funcionais, neurodesenvolvimentais e clínicos

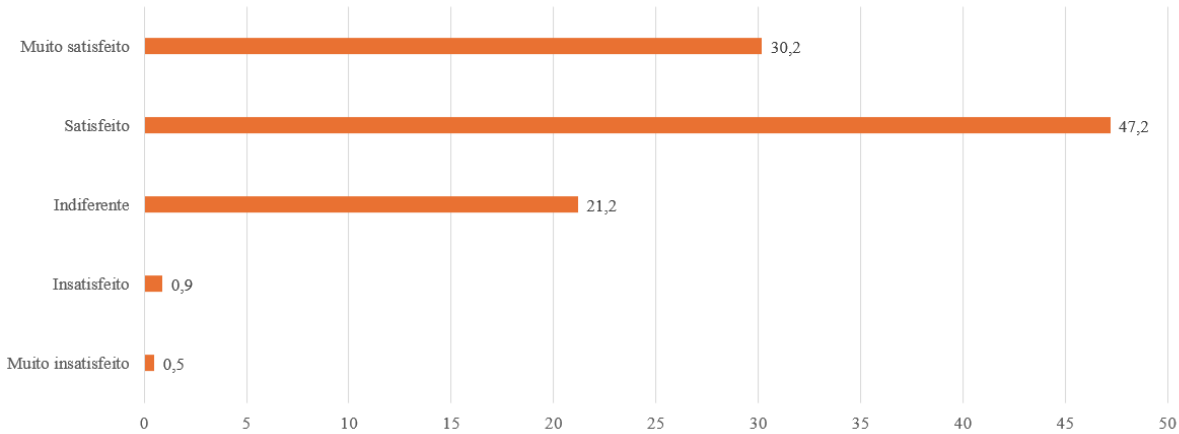
4.1.1.1 Famílias e cuidadores

Duzentas e doze famílias participaram do estudo, a maioria com dois responsáveis legais (78.3%), baixa renda (78.7%), alta escolaridade (63.7%) (tabela 9). A maior parte das famílias relatou alta QV familiar (77.4%) segundo os níveis da Family Quality of Life Scale (gráfico 1). A mediana (IIQ) do escore total da Family Quality of Life Scale foi de 96.0 (86.0-107.0).

Tabela 9 – Características sociodemográficas das famílias da amostra paralisia cerebral

Famílias N (%)	212 (100)
Dois responsáveis legais	166 (78.3)
Um responsável legal	46 (21.7)
Baixa renda	167 (78.7)
Alta renda	45 (21.3)
Baixa escolaridade	77 (36.3)
Alta escolaridade	135 (63.7)

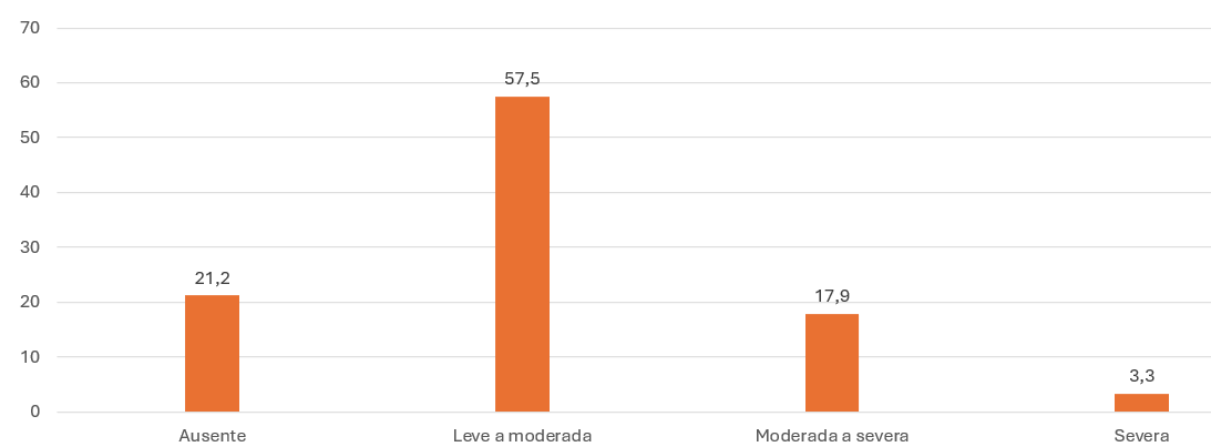
Gráfico 1 – Frequência (porcentagem) dos níveis de satisfação com a qualidade de vida da família na paralisia cerebral aferidos pela Family Quality of Life Scale



Fonte: O autor, 2024.

As 212 principais cuidadoras eram do sexo feminino, e relataram predominantemente baixa sobrecarga do cuidador (78.7%) segundo os níveis da Burden Interview (gráfico 2). A mediana (IIQ) do escore total da Burden Interview foi de 30.0 (22.0-38.2).

Gráfico 2 – Frequência (porcentagem) dos níveis de sobrecarga do cuidador na paralisia cerebral aferidos pela Burden Interview



Fonte: O autor, 2024.

4.1.1.2 Pacientes, irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico

Duzentos e doze pacientes participaram do estudo, com mediana de idade de 6 anos (IIQ 4 a 10 anos). A maior parte deles tinha de 2 a 5 anos de idade (43.9%) e 120 eram do sexo masculino (56.6%). A maioria dos pacientes tinha impacto intelectual (79.7%) e baixo impacto na capacidade de deglutição (85.9%). As proporções de baixo (51.4%) e alto (48.6%) impacto na coordenação motora grossa e de epilepsia ausente (49.1%) e presente (50.9%) foram equilibradas (tabela 10).

Tabela 10 – Características sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes da amostra paralisia cerebral (continua)

Pacientes (N)	212
Idade N (%)	
2-5 anos	93 (43.9)
6-9 anos	74 (34.9)
10-12 anos	28 (13.2)
13-16 anos	17 (8.0)

Tabela 10 – Características sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes da amostra paralisia cerebral (continuação)

Pacientes (N)	212
Idade (anos) Mediana (IIQ)	6 (4-10)
Sexo N (%)	
Masculino	120 (56.6)
Feminino	92 (43.4)
Variáveis funcionais N (%)	
Baixo impacto na capacidade motora grosseira	109 (51.4)
Alto impacto na capacidade motora grosseira	103 (48.6)
Baixo impacto na capacidade de deglutição	182 (85.9)
Alto impacto na capacidade de deglutição	30 (14.1)
Impacto intelectual N (%)	
AGD ou DI ausente	43 (20.3)
AGD ou DI presente	169 (79.7)
Epilepsia N (%)	
Epilepsia ausente	104 (49.1)
Epilepsia presente	108 (50.9)

Legendas: atraso global do desenvolvimento (AGD); deficiência intelectual (DI); intervalo interquartil (IIQ);

Foram avaliados 131 irmãos com mediana de idade de 13 anos (IIQ 11 a 14 anos). As proporções entre as faixas etárias de 10 a 12 anos (49.6%) e de 13 a 15 anos (50.4%), e entre os sexos masculino (47.3%) e feminino (52.7%) foram equilibradas (tabela 11).

Tabela 11 – Características sociodemográficas dos irmãos da amostra paralisia cerebral

Irmãos (N)	131 (100)
Idade N (%)	
10-12 anos	65 (49.6)
13-15 anos	66 (50.4)
Idade (anos) Mediana (IIQ)	13 (11-14)
Sexo N (%)	
Masculino	62 (47.3)
Feminino	69 (52.7)

Legendas: intervalo interquartil (IIQ).

A amostra de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico foi

composta por 1321 indivíduos (752 de 10 a 12 anos; 709 do sexo feminino), em sua maioria provenientes de famílias de baixa renda.

4.1.2 Modelos univariados

4.1.2.1 Qualidade de vida autorreferida de irmãos e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico

A QV autorreferida dos irmãos (pontuações médias total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) foi significativamente reduzida em relação àquela das crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico (pontuações médias total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) em todos os domínios e na pontuação total, como descrito a seguir: saúde e bem-estar físico ($p < 0.001$; IC 95% -9.1 a -3.1; tamanho de efeito pequeno), bem-estar psicológico ($p < 0.001$; IC 95% -10.0 a -4.3; tamanho de efeito médio), autonomia e relacionamento com os pais ($p = 0.006$; IC 95% -5.6 a -1.3; tamanho de efeito pequeno), apoio social e pares ($p = 0.04$; IC 95% -6.9 a -1.9; tamanho de efeito pequeno), ambiente escolar ($p < 0.001$; IC 95% -10.5 a -3.0; tamanho de efeito pequeno) e pontuação total ($p < 0.001$; IC 95% -7.6 a -3.6; tamanho de efeito médio) (tabela 12).

Tabela 12 - Comparação das médias de pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico na amostra paralisia cerebral

	KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version		P	IC 95%		Tamanho de efeito
	Irmãos	CABDT		Inferior	Superior	
	N=131 Média (DP)	Média (DP)				
Saúde e bem-estar físico	70.6 (16.3)	77.7 (14.1)	<.001	- 9.1	- 3.1	- 0.389
Bem-estar psicológico	78.5 (13.9)	85.7 (12.1)	<.001	- 10.0	- 4.3	- 0.661
Autonomia e relação com os pais	72.3 (14.1)	77.0 (15.8)	0.006	- 5.6	- 1.3	- 0.274
Suporte social e pares	76.7 (17.9)	81.9 (16.5)	0.04	- 6.9	- 1.9	- 0.207
Ambiente escolar	78.0 (16.2)	85.5 (14.5)	<.001	- 10.5	- 3.0	- 0.482
Pontuação total	75.2 (10.9)	81.3 (10.5)	<.001	- 7.6	- 3.6	- 0.550

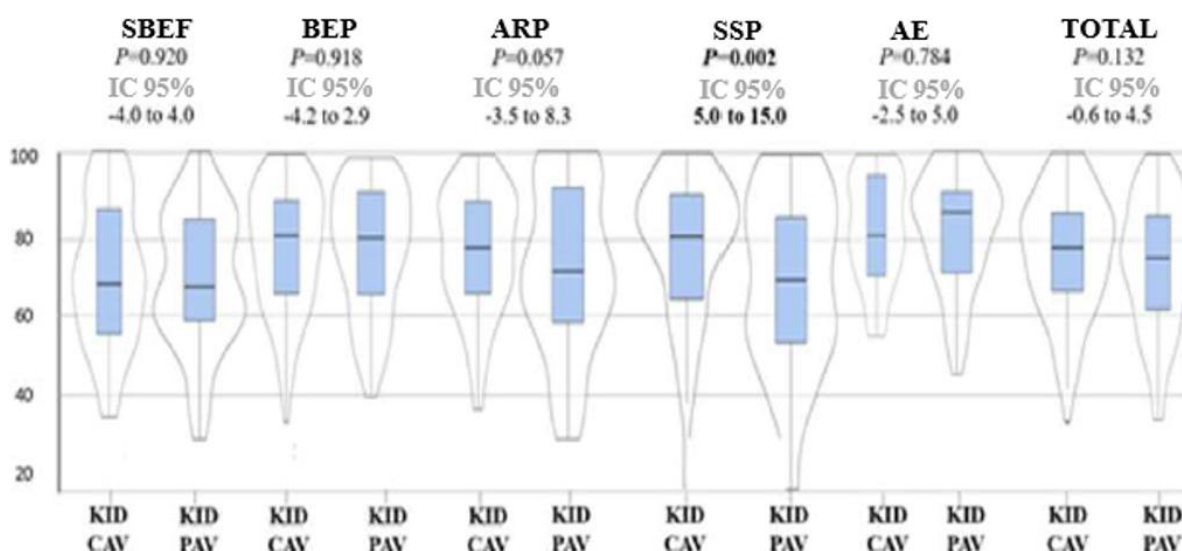
Legendas: crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico (CABDT); desvio padrão (DP); intervalo de confiança (IC).

4.1.2.2 Qualidade de vida dos irmãos autorrelatada e relatada pelos pais

Não houve diferenças significativas entre a QV relatada pelos próprios irmãos e pelos pais (mediana das pontuações total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent

Version e KIDSCREEN-27 Parent Version respectivamente) nos domínios e na pontuação total, exceto para o domínio apoio social e pares, em que a percepção dos irmãos foi significativamente mais positiva ($p=0.002$; IC 95% 5.0 a 15.0) (gráfico 3).

Gráfico 3 – Pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN Parent Version dos irmãos na paralisia cerebral



Legendas: ambiente escolar (AE); autonomia e relação com os pais (ARP); bem-estar psicológico (BEP); intervalo de confiança (IC); KIDSCREEN 27 Child and Adolescent Version (KID CAV); KIDSCREEN 27 Child and Parent Version (KID PAV); saúde e bem-estar físico (SBEF); suporte social e pares (SSP).

Fonte: O autor, 2024.

4.1.3 Modelos multivariados

4.1.3.1 Modelos multivariados de qualidade de vida da família e de sobrecarga do cuidador

A QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) foi significativamente menor à medida que a sobrecarga dos cuidadores (pontuações totais na Burden Interview) se elevava (IC 95% -0.66 a -0.38) e significativamente mais alta em famílias com baixo nível educacional (IC 95% 0.38 a 8.16).

A sobrecarga do cuidador (pontuações totais na Burden Interview) foi significativamente reduzida com o aumento dos níveis de QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) (IC 95% -0.52 a -0.30) (tabela 13).

Tabela 13 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da Family Quality of Life Scale e da Burden Interview na amostra paralisia cerebral

Variáveis	Pontuação total na FQoLS			Pontuação total na BI		
	Coeficiente	IC 95%	P	Coeficiente	IC 95%	P
Idade (pacientes)	0.24	-0.22,0.71	0.30	-0.38	-0.80,0.02	0.064
Sexo (pacientes), masculino vs feminino	1.37	-2.19,4.93	0.44	-1.03	-2.14,4.22	0.521
GMFCS, baixo vs alto impacto	-0.25	-4.43,3.91	0.90	0.66	-3.06,4.38	0.727
EDACS, baixo vs alto impacto	3.73	-1.83,9.31	0.18	-0.69	-5.69,4.30	0.784
AGD/DI, ausente vs presente	0.371	-4.64,5.38	0.88	3.00	-1.46,7.46	0.186
Epilepsia, ausente vs presente	-0.82	-4.89,3.24	0.68	1.82	-1.80,5.45	0.323
Composição familiar, 2 vs 1 RL	-1.79	-6.12,2.54	0.41	1.78	-2.08,5.65	0.363
CEF, baixa vs alta renda	-3.46	-7.92, 0.99	0.12	0.679	-3.32,4.68	0.738
EF, baixa vs alta escolaridade	4.27	0.38,8.16	0.03	2.50	-0.99,6.00	0.159
Pontuação total na BI	-5.52	-0.66,-0.38	<.001	-	-	-
Pontuação total na FQoLS	-	-	-	-0.41	-0.52,-0.30	<.001

Legendas: atraso global do desenvolvimento (AGD); Burden Interview (BI); classificação econômica familiar (CEF); deficiência intelectual (DI); Eating and Drinking Ability Classification System (EDACS); escolaridade familiar (EF); Family Quality of Life Scale (FQoLS); Gross Motor Function Classification System (GMFCS); intervalo de confiança 95% (IC95%); responsável legal (RL).

4.1.3.2 Modelos multivariados de qualidade de vida dos irmãos

A QV autorreferida dos irmãos (pontuações totais no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) foi significativamente mais baixa conforme a idade dos irmãos (IC 95% -2.52 a -0.59) e a sobrecarga do cuidador (pontuações totais na Burden Interview) (IC 95% -0,35 a -0,05) aumentaram e em famílias com dois responsáveis legais (IC 95% -9.49 a -0.29).

A QV dos irmãos relatada pelos pais (pontuações totais no KIDSCREEN-27 Parent Version) foi significativamente pior com o aumento dos níveis de sobrecarga do cuidador (pontuações totais na Burden Interview) (IC 95% -0.45 a -0.16) e significativamente melhor quanto maior a QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) (IC 95% 0,09 a 0,37) (Tabela 14).

Tabela 14 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra paralisia cerebral (continua)

Variáveis	Pontuação total KIDSCREEN-27 CAV			Pontuação total KIDSCREEN-27 PAV		
	CF	95% CI	P	CF	95% CI	P
Idade (irmãos)	-1.56	-2.52, -0.59	0.002	-0.76	-1.68, 0.15	0.101
Sexo (irmãos), masc vs fem	-3.48	-6.97,6.24	0.05	1.95	-1.37, 5.28	0.248

Tabela 14 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra paralisia cerebral (continuação)

Variáveis	Pontuação total KIDSCREEN-27 CAV			Pontuação total KIDSCREEN-27 PAV		
	CF	95% CI	P	CF	95% CI	P
Idade (pacientes)	-0.30	-0.80, 0.19	0.22	0.05	-0.42, 0.53	0.814
Sexo (pacientes), masc vs fem	-2.57	-6.23, 1.08	0.16	-1.35	-4.85, 2.13	0.442
GMFCS, baixo vs alto impacto	0.24	-3.70, 4.20	0.90	-2.13	-5.91, 1.63	0.265
EDACS baixo vs alto impacto	1.34	-4.81, 7.51	0.66	-1.45	-7.34, 4.42	0.624
AGD/DI, ausente vs presente	3.14	-1.52, 7.81	0.18	2.38	-2.07, 6.84	0.291
Epilepsia, ausente vs presente	-0.32	-4.09, 3.44	0.86	3.01	-0.57, 6.61	0.099
Composição familiar, 2 vs 1 RL	-4.89	-9.49, -0.29	0.03	-3.39	-7.78, 0.99	0.129
CEF, baixa vs alta renda	-0.73	-5.10, 3.63	0.74	-0.30	-4.48, 3.86	0.884
EF, baixa vs alta escolaridade	-0.11	-3.98, 3.75	0.95	-1.85	-5.55, 1.83	0.321
Pontuação total na BI	-0.20	-0.35, -0.05	0.007	-0.30	-0.45, -0.16	< .001
Pontuação total na FQoLS	0.14	-0.01, 0.29	0.06	0.23	0.09, 0.37	0.002

Legendas: atraso global do desenvolvimento (AGD); Burden Interview (BI); classificação econômica familiar (CEF); deficiência intelectual (DI); Eating and Drinking Ability Classification System (EDACS); escolaridade familiar (EF); Family Quality of Life Scale (FQoLS); feminino (fem); Gross Motor Function Classification System (GMFCS); intervalo de confiança 95% (IC95%); KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version (KIDSCREEN-27 CAV); KIDSCREEN-27 Parent Version (KIDSCREEN-27 PAV); masculino (masc); responsável legal (RL).

4.2 Amostra mielomeningocele (resultados descritos no artigo “Quality of life of families and siblings of children and adolescents with meningomyelocele” – Apêndice H)

4.2.1 Dados sociodemográficos, funcionais e clínicos

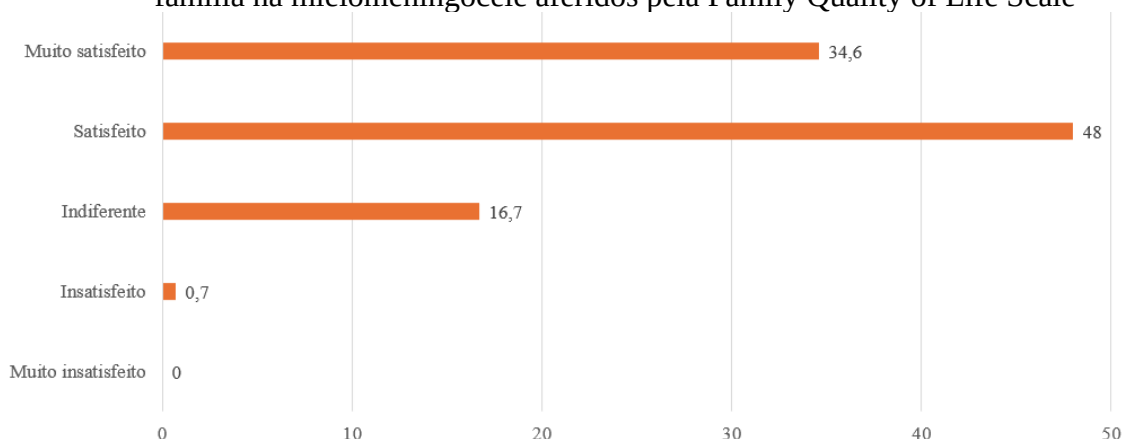
4.2.1.1 Famílias e cuidadores

Cento e cinquenta famílias foram avaliadas, a maioria com dois responsáveis legais (78.6%), alta renda (70.7%), alta escolaridade (78.6%) (tabela 15). A maior parte das famílias relatou alta QV familiar (82.6%) segundo os níveis da Family Quality of Life Scale (gráfico 4). A mediana (IIQ) do escore total da Family Quality of Life Scale foi de 96.5 (89.0-109.0).

Tabela 15 – Variáveis sociodemográficas das famílias da amostra mielomeningocele

Famílias N (%)	150 (100)
Dois responsáveis legais	118 (78.6)
Um responsável legal	32 (21.4)
Baixa renda	44 (29.3)
Alta renda	106 (70.7)
Baixa escolaridade	32 (21.4)
Alta escolaridade	118 (78.6)

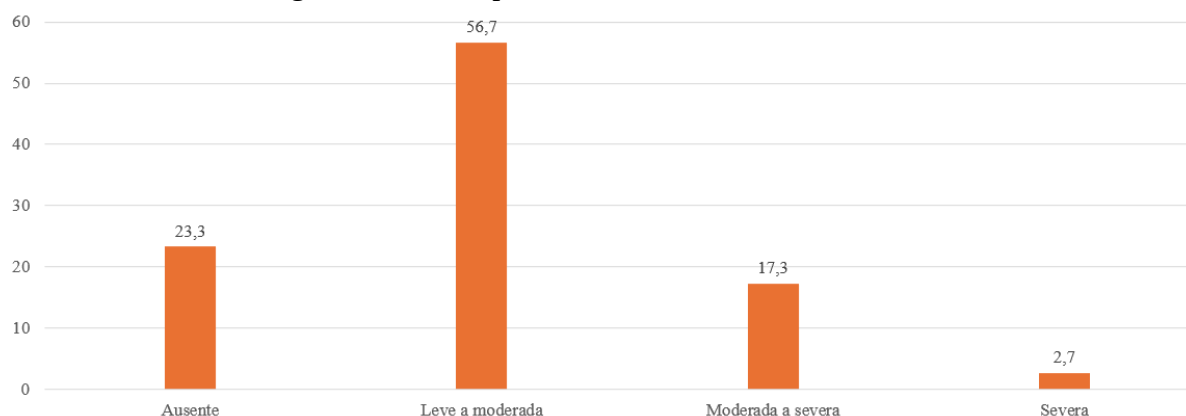
Gráfico 4 – Frequência (porcentagem) dos níveis de satisfação com a qualidade de vida da família na mielomeningocele aferidos pela Family Quality of Life Scale



Fonte: O autor, 2024.

As 150 principais cuidadoras eram do sexo feminino, e referiram predominantemente baixa sobrecarga do cuidador (80.0%) segundo os níveis da Burden Interview (gráfico 5). A mediana (IIQ) do escore total da Burden Interview foi de 29.0 (21.0-37.7).

Gráfico 5 – Frequência (porcentagem) dos níveis de sobrecarga do cuidador na mielomeningocele aferidos pela Burden Interview



Fonte: O autor, 2024.

4.2.1.2 Pacientes, irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico

Cento e cinquenta pacientes participaram do estudo, com mediana de idade de 6 anos (IIQ 4 a 9 anos). A maior parte deles tinha de 2 a 5 anos de idade (42.7%) e 80 eram do sexo feminino (53.3%). A maioria necessitava da realização do CVIL (90.7%) e apresentava incontinência fecal (66.0%). A proporção entre baixo (51.4%) e alto (48.6%) impacto na coordenação motora grosseira foi equilibrada (tabela 16).

Tabela 16 – Variáveis sociodemográficas, funcionais e clínicas dos pacientes da amostra mielomeningocele

Pacientes (N)	150 (100)
Idade N (%)	
2-5 anos	64 (42.7)
6-9 anos	52 (34.6)
10-12 anos	21 (14.0)
13-16 anos	13 (8.7)
Idade (anos) Mediana (IIQ)	6 (4-9)
Sexo N (%)	
Masculino	70 (46.7)
Feminino	80 (53.3)
Variável funcional N (%)	
Baixo impacto na capacidade motora grosseira	109 (51.4)
Alto impacto na capacidade motora grosseira	103 (48.6)
Variáveis clínicas N (%)	
Necessidade de cateterismo vesical intermitente - ausente	14 (9.3)
Necessidade de cateterismo vesical intermitente - presente	136 (90.7)
Incontinência fecal - ausente	51 (34.0)
Incontinência fecal - presente	99 (66.0)

Legendas: intervalo interquartil (IIQ).

Foram avaliados 68 irmãos com mediana de idade de 6 anos (IIQ 11 a 14 anos). As proporções entre as faixas etárias de 10 a 12 anos (49.6%) e de 13 a 15 anos (50.4%), e entre os sexos masculino (47.3%) e feminino (52.7%) foram equilibradas (tabela 17).

Tabela 17 – Variáveis sociodemográficas dos irmãos da amostra mielomeningocele

Irmãos (N)	68 (100)
Idade N (%)	
10-12 anos	32 (47.1)
13-15 anos	36 (52.9)
Idade (anos) Mediana (IIQ)	13 (11-14)
Sexo N (%)	
Masculino	34 (50.0)
Feminino	34 (50.0)

Legendas: intervalo interquartil (IIQ).

A amostra de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico foi composta por 1321 indivíduos (752 de 10 a 12 anos; 709 do sexo feminino), em sua maioria provenientes de famílias de baixa renda.

4.2.2 Modelos univariados

4.2.2.1 Qualidade de vida autorreferida de irmãos e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico

A QV autorreferida dos irmãos (pontuações médias total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) foi significativamente reduzida em relação àquela das crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico (pontuações médias total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) nas pontuações total e dos domínios, como descrito a seguir: saúde e bem-estar físico ($p = 0.005$; 95% CI 11.7 a 3.7; tamanho de efeito pequeno), bem-estar psicológico ($p < 0.001$; 95% CI 12.9 a 5.7; tamanho de efeito médio), ambiente escolar ($p = 0.013$; 95% CI 8.0 a 0.5; tamanho de efeito pequeno) e pontuação total ($p < 0.001$; 95% CI 8.0 a 2.2; tamanho de efeito pequeno), exceto nos domínios autonomia e relacionamento com os pais ($p = 0.767$; 95% CI 4.2 a 3.0; tamanho de efeito pequeno) e apoio social e pares ($p = 0.472$; 95% CI 6.9 a 3.1; tamanho de efeito pequeno) (tabela 18).

Tabela 18 - Comparação das médias de pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version entre irmãos e crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico na amostra mielomeningocele (continuação)

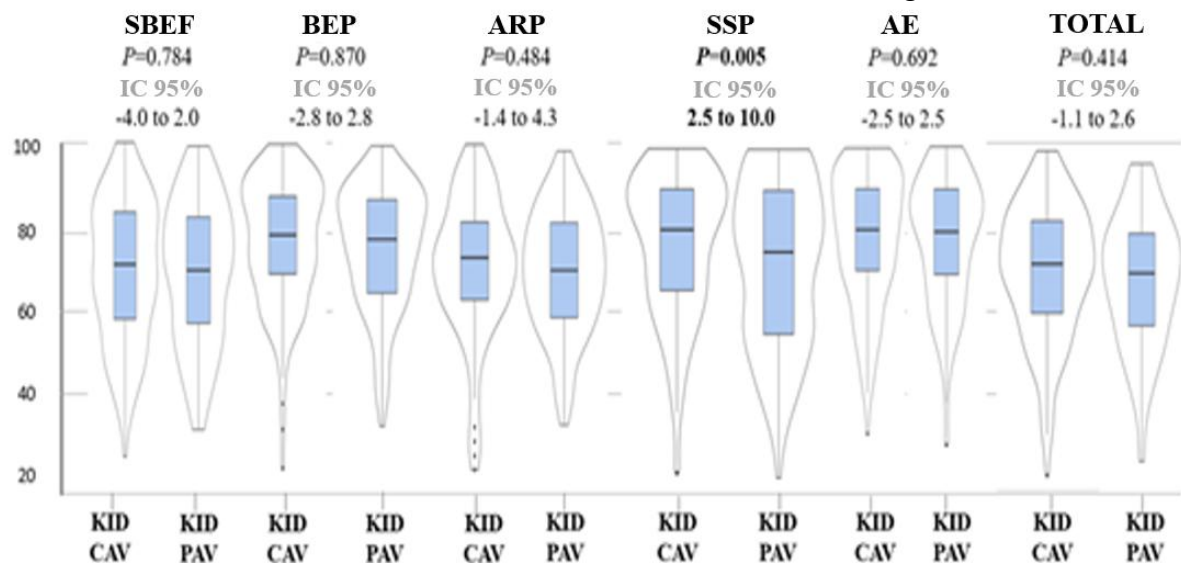
	KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version		P	IC 95%		Tamanho de efeito
	Irmãos	CABDT		Inferior	Superior	
	N=68 Média (DP)	Média (DP)				
Saúde e bem-estar físico	70.7 (17.2)	77.7 (14.1)	0.005	- 11.7	- 3.7	-0.396
Bem-estar psicológico	76.7 (15.4)	85.7 (12.1)	<.001	- 12.9	- 5.7	-0.649
Autonomia e relação com os pais	76.0 (15.2)	77.0 (15.8)	0.767	- 4.2	3.0	0.041
Suporte social e pares	77.4 (18.0)	81.9 (16.5)	0.472	- 6.9	3.1	-0.101
Ambiente escolar	81.5 (13.1)	85.5 (14.5)	0.013	- 8.0	- 0.5	-0.348
Pontuação total	76.1 (12.0)	81.3 (10.5)	<.001	- 8.0	- 2.2	-0.430

Legendas: crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico (CABDT); desvio padrão (DP); intervalo de confiança (IC).

4.2.2.2 Qualidade de vida dos irmãos autorrelatada e relatada pelos pais

Não houve diferenças significativas entre a QV relatada pelos próprios irmãos e pelos pais (mediana das pontuações total e dos domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e KIDSCREEN-27 Parent Version respectivamente), exceto para o domínio apoio social e pares, em que a percepção dos irmãos foi significativamente mais positiva ($p = 0.005$; IC 95% 2.5 a 10.0) (gráfico 6).

Gráfico 6 – Pontuações total e dos domínios na KIDSCREEN Child and Adolescent Version e na KIDSCREEN Parent Version dos irmãos na mielomeningocele



Legendas: ambiente escolar (AE); autonomia e relação com os pais (ARP); bem-estar psicológico (BEP); intervalo de confiança (IC); KIDSCREEN 27 Child and Adolescent Version (KID CAV); KIDSCREEN 27 Child and Parent Version (KID PAV); saúde e bem-estar físico (SBEF); suporte social e pares (SSP).

Fonte: O autor, 2024.

4.2.3 Modelos multivariados

4.2.3.1 Modelos multivariados de qualidade de vida da família e de sobrecarga do cuidador

A QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) foi significativamente menor à medida que a sobrecarga dos cuidadores (pontuações totais na Burden Interview) se elevava (IC 95% -0.83 a -0.51).

A sobrecarga do cuidador (pontuações totais na Burden Interview) foi significativamente reduzida com a elevação dos níveis de QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) (IC 95% -0.62 a -0.38) (tabela 19).

Tabela 19 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da Family Quality of Life Scale e da Burden Interview na amostra mielomeningocele

Variáveis	Pontuação total na FQoLS			Pontuação total na BI		
	Coeficiente	IC95%	P	Coeficiente	IC95%	P
Idade (pacientes)	-	-	-	-0.27	-0.76,-0.21	0.274
Idade (pacientes), 2-9 vs 10-16 anos	-2.53	-7.30,2.22	0.294	-	-	-
Sexo (pacientes), masculino vs feminino	0.55	-3.32,4.42	0.779	3.13	-0.17,6.45	0.063
Hoffer, baixo vs alto impacto	-1.05	-5.15,3.04	0.612	2.57	-0.95,6.09	0.151
CVIL, ausente vs presente	4.26	-4.40,10.9	0.208	-0.90	-6.71,4.89	0.758
Incontinência fecal, ausente vs presente	-1.55	-5.89,2.79	0.481	1.89	-1.91,5.70	0.327
Composição familiar, 2 vs 1 RL	-0.38	-5.24,4.47	0.875	1.90	-2.28,6.10	0.370
CEF, baixa vs alta renda	-4.12	-8.58, 0.33	0.069	-1.62	-5.53,2.29	0.414
EF, baixa vs alta escolaridade	1.77	-3.10,6.66	0.473	3.17	-1.02,7.37	0.138
Pontuação total na BI	-0.67	-0.83,-0.51	<.001	-	-	-
Pontuação total na FQoLS	-	-	-	-0.50	-0.62,-0.38	<.001

Legendas: Burden Interview (BI); classificação econômica familiar (CEF); cateterismo vesical intermitente limpo (CVIL); escolaridade familiar (EF); Family Quality of Life Scale (FQoLS); intervalo de confiança 95% (IC95%); responsável legal (RL).

A QV autorreferida dos irmãos (pontuações totais no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version) foi significativamente maior conforme a satisfação com a QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) (IC 95% 0.20 a 0.67) aumentava.

A QV dos irmãos relatada pelos pais (pontuações totais no KIDSCREEN-27 Parent Version) foi significativamente pior com o aumento dos níveis de sobrecarga dos cuidadores (pontuações totais na Burden Interview) (IC 95% -0.59 a -0.09) e significativamente melhor quanto maior a QV da família (pontuações totais na Family Quality of Life Scale) (IC 95% 0.21 a 0.70) (Tabela 20).

Tabela 20 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra mielomeningocele (continua)

Variáveis	Pontuação total na KIDSCREEN-27 CAV			Pontuação total na KIDSCREEN-27 PAV		
	Coeficiente	IC95%	P	Coeficiente	IC95%	P
Idade (irmãos)	-2.10	-3.59,-0.60	0.007	-1.22	-2.79,-0.34	0.125
Sexo (irmãos), masculino vs feminino	-5.03	-10.0,0.02	0.051	-3.92	-9.38,1.52	0.155
Idade (pacientes)	-	-	-	0.11	-0.72,0.95	0.784
Idade (pacientes), 2-9 vs 10-16 anos	-4.68	-13.2,3.93	0.280	-	-	-
Sexo (pacientes), masculino vs feminino	5.45	0.13,11.0	0.056	2.20	-3.46,7.86	0.440

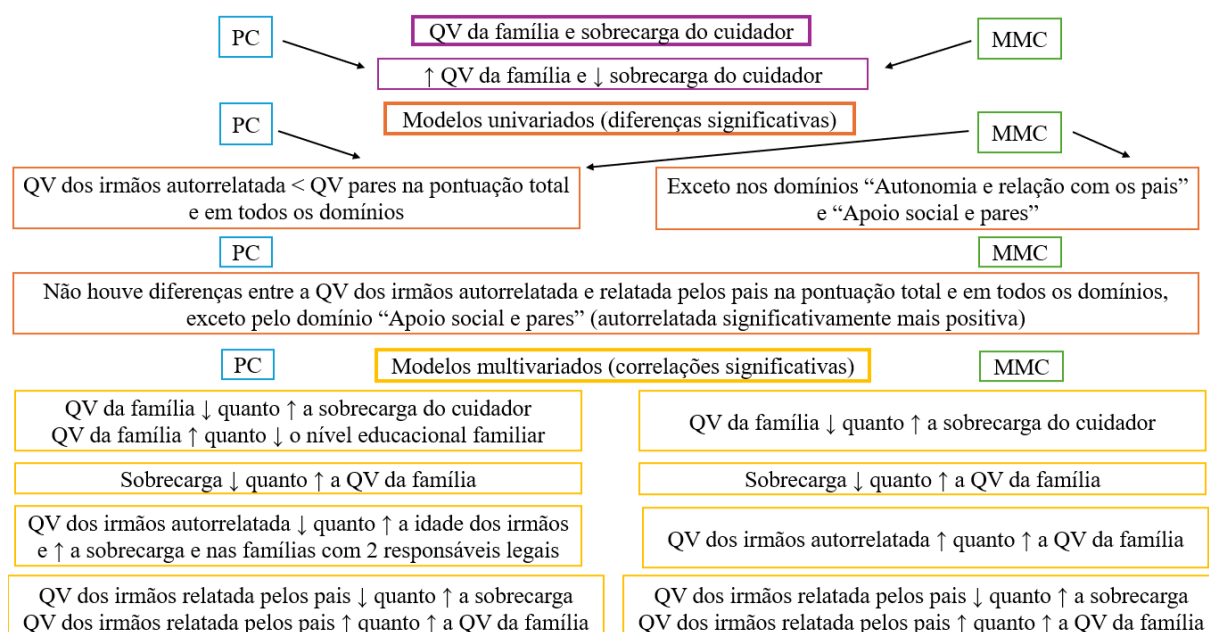
Tabela 20 - Coeficientes de regressão estimados para as variáveis incluídas nos modelos multivariados construídos para as pontuações totais da KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e da KIDSCREEN-27 Parent Version na amostra mielomeningocele (continuação)

Variáveis	Pontuação total na KIDSCREEN-27 CAV			Pontuação total na KIDSCREEN-27 PAV		
	Coeficiente	IC95%	P	Coeficiente	IC95%	P
Hoffer, baixo vs alto impacto	1.01	-4.42,6.45	0.710	1.91	-3.93,7.75	0.515
CVIL, ausente vs presente	1.19	-8.61,11.0	0.808	-1.58	-12.0,8.90	0.763
Incontinência fecal, ausente vs presente	-2.24	-7.80, 3.30	0.421	3.58	-2.45, 9.62	0.239
Composição familiar, 2 vs 1 RL	-3.20	-10.3,3.92	0.371	-	-	-
CEF, baixa vs alta renda	3.37	-2.31, 9.06	0.240	-2.94	-9.09, 3.21	0.343
EF, baixa vs alta escolaridade	-3.91	-9.83, 2.00	0.191	-2.46	-8.90,3.97	0.447
Pontuação total na BI	-0.01	-0.23,0.23	0.977	-0.34	-0.59,-0.09	0.008
Pontuação total na FQoLS	0.43	0.20,0.67	<.001	0.45	0.21,0.70	<.001

Legendas: Burden Interview (BI); classificação econômica familiar (CEF); cateterismo vesical intermitente limpo (CVIL); escolaridade familiar (EF); Family Quality of Life Scale (FQoLS); intervalo de confiança 95% (IC95%); KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version (KIDSCREEN-27 CAV); KIDSCREEN-27 Parent Version (KIDSCREEN-27 PAV); masculine (masc); responsável legal (RL).

Na figura 6 estão resumidos os principais resultados do estudo.

Figura 6 - Resumo dos principais resultados do estudo



Legendas: paralisia cerebral (PC); mielomeningocele (MMC).

5 DISCUSSÃO

Até onde sabemos, este estudo é o primeiro a analisar especificamente as associações entre QV da família, sobrecarga dos cuidadores e QV dos irmãos em famílias de crianças e adolescentes com PC e com MMC.

Notavelmente, as variáveis funcionais, intelectuais e clínicas dos pacientes não foram significativamente correlacionadas com a QV da família, com a sobrecarga dos cuidadores e com a QV dos irmãos relatada pelos próprios irmãos e pelos pais em nenhuma das duas amostras.

Em ambas as amostras, a QV da família e a sobrecarga dos cuidadores foram importantes fatores de influência significativa entre si. A QV da família foi significativamente menor naqueles com maior sobrecarga dos cuidadores, a sobrecarga dos cuidadores foi significativamente reduzida à medida que a QV da família aumentava, e os irmãos tiveram QV significativamente pior do que a de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico.

Além destes achados, na amostra PC, a QV da família foi significativamente melhor nas famílias com nível máximo educacional mais baixo, a QV autorreferida dos irmãos foi significativamente pior com o aumento da idade dos irmãos e da sobrecarga dos cuidadores e nas famílias com dois responsáveis legais, e a QV dos irmãos relatada pelos pais foi menor e maior, respectivamente, à medida que a sobrecarga dos cuidadores e a QV da família aumentaram. Na amostra MMC, a QV autorrelatada dos irmãos foi significativamente melhor com a elevação dos níveis de QV da família, e a QV dos irmãos relatada pelos pais foi pior e melhor, respectivamente, com maiores níveis de sobrecarga dos cuidadores e de QV da família.

5.1 Amostra paralisia cerebral

5.1.1 Qualidade de vida da família na paralisia cerebral

Na amostra PC, a maioria das famílias tinha dois responsáveis legais, era de baixa renda, tinha alta escolaridade e predominantemente declararam alta QV da família segundo os escores da Family Quality of Life Scale. De forma concordante, Magill-Evans *et al* (2001) encontraram no Canadá poucas diferenças no funcionamento familiar, na satisfação com a vida e no suporte social percebido na Family Assessment Device entre os grupos de famílias de adolescentes com PC e de adolescentes sem deficiência física. Um estudo realizado em Israel também utilizou a

Family Quality of Life Scale e não encontrou diferença significativa na QV da família comparativamente aos controles (Schertz *et al*, 2016). Já no estudo de Ljubičić *et al* (2022) realizado na Croácia a QV da família foi significativamente pior na amostra PC em relação aos controles na Family Quality of Life Scale, tanto na pontuação total, quanto nos domínios interação familiar, parentagem, bem-estar emocional, bem-estar físico/material e suporte ao familiar com deficiência. Dobhal *et al* (2014) em pesquisa conduzida na Índia encontraram a QV das famílias de crianças e adolescentes com PC aferida pela Lifestyle assessment questionnaire - Cerebral Palsy moderada a severamente afetada em dois terços da amostra. Sogbossi *et al* (2021) utilizando a Impact on Family Scale encontraram famílias de crianças com PC com elevados impactos na QV familiar no Benin. Estas diferenças poderiam possivelmente serem explicadas pelas diferenças socioeconómicas entre países de alta renda (Canadá, Croácia e Israel), média-alta renda (Brasil), média-baixa renda (Índia), e de baixa renda (Benin) e pela diversidade dos instrumentos utilizados nos estudos.

Na presente amostra PC, a QV da família se mostrou significativamente pior e melhor, respectivamente, em famílias com pontuações crescentes de sobrecarga dos cuidadores e com baixo nível educacional. Nenhum dos estudos encontrados correlacionou a QV da família com a sobrecarga do cuidador. Provavelmente, um baixo nível de escolaridade gerou menores expectativas com a QV da família, e uma elevada sobrecarga dos cuidadores reduziu o seu tempo e atenção para com a família. Um estudo realizado na Bósnia e Herzegovina também observou QV da família significativamente melhor no Pediatric Quality of Life Inventory 2.0 Family Impact Module em famílias de crianças com PC com baixo nível educacional (Glinac *et al*, 2017). Contrariamente aos nossos resultados, Kołtuniuk *et al* (2019) na Polónia e Ying K *et al* (2021) na Malásia, ambos utilizando o Pediatric Quality of Life Inventory Family Impact Module, encontraram famílias com melhor nível educacional e melhor formação profissional com maior nível de satisfação familiar. Na população estudada no presente estudo não foi achada correlação significativa entre as classificações funcionais dos pacientes e a QV da família. Em desacordo, nas amostras de Glinac *et al* (2017) e de Sogbossi *et al* (2021), a maior gravidade nos déficits funcionais se associou de forma significativa com uma pior QV da família. Não encontramos também associações significativas entre a renda familiar e a presença de dois ou um responsável legal pelos pacientes com PC com a QV da família. Kołtuniuk *et al* (2019) encontraram na Polónia associação significativa entre pais em união estável e a melhor QV da família e Ying K *et al* (2021) na Malásia acharam correlação significativa entre a baixa renda familiar e a pior QV da família.

Os resultados do presente estudo reforçam a relevância das relações entre as dimensões sobrecarga do cuidador e QV da família.

5.1.2 Sobrecarga dos cuidadores na paralisia cerebral

Todas as cuidadoras eram do sexo feminino, o que pode revelar que no Brasil, em pleno ano de 2024, as famílias ainda seguem predominantemente um modelo patriarcal no qual não há um equilíbrio entre direitos e deveres entre homens e mulheres. A maioria das cuidadoras expressou baixa sobrecarga segundo os escores da Burden Interview. A maior parte dos estudos encontrados sobre sobrecarga do cuidador na PC também usou a Burden Interview para avaliação (Camargos *et al*, 2009; Davis *et al*, 2010; Ferreira *et al*, 2015; Ozkan, 2018; Souza *et al*, 2018; Yiğman *et al*, 2020; Barutcu *et al*, 2021; Chávez Andrade, 2021; Nunes *et al*, 2021). Dentre estes, os estudos de Camargos *et al* (2009), Ferreira *et al* (2015), Souza *et al* (2018) e Nunes *et al* (2021) foram realizados no Brasil. Em concordância conosco, Nunes *et al* (2021) encontraram a maioria dos cuidadores com baixa sobrecarga (ausente ou leve a moderada) em uma amostra muito reduzida com apenas 5 cuidadores. Divergentemente dos nossos resultados, no estudo de Souza *et al* (2018) a maior parte dos cuidadores declarou sobrecarga moderada.

Nesta amostra PC, a única variável significativamente associada a menor sobrecarga do cuidador foi a maior QV da família. Não foram encontradas correlações significativas entre variáveis sociodemográficas, funcionais, neurodesenvolvimentais e clínicas com a sobrecarga do cuidador. Ferreira *et al* (2015) também não encontraram associações significativas entre classe econômica familiar e status laboral com sobrecarga do cuidador. Já Camargos *et al* (2009) e no Sri Lanka Wijesinghe *et al* (2015) evidenciaram correlação significativa entre baixa renda familiar com alta sobrecarga do cuidador. Wijesinghe *et al* (2015), Nunes *et al* (2021) e na Turquia Ozkan (2018) encontraram associação significativa entre maior comprometimento na capacidade motora grosseira com alta sobrecarga do cuidador. Na Colômbia, Chávez Andrade (2021) achou correlação significativa entre pais separados, divorciados ou viúvos e famílias com nível de escolaridade máximo de ensino médio incompleto com a sobrecarga do cuidador.

Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores. Algumas variáveis estudadas em outras pesquisas não foram analisadas no presente estudo. Ferreira *et al* (2015) acharam associações significativas entre QV do cuidador e sobrecarga do cuidador. Gugala (2021) utilizando a Caregiver Burden Scale na Polônia e Souza *et al* (2018) encontraram correlação significativa entre altos níveis de ansiedade e de depressão e a sobrecarga do cuidador. Na Turquia, Barutcu *et al* (2021) acharam associação significativa

entre idade materna mais avançada e maior sobrecarga do cuidador e Yiğman *et al* (2020) evidenciaram correlação significativa entre menor QV da criança com PC com a sobrecarga do cuidador.

Os resultados do presente estudo, mais uma vez, reforçam a relevância das relações entre as dimensões sobrecarga do cuidador e QV da família.

5.1.3 Qualidade de vida dos irmãos na paralisia cerebral

A amostras de irmãos de crianças e adolescentes com PC e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico foram pareadas por idade (10 a 15 anos) e apresentaram frequências comparáveis em faixas etárias, sexo e características socioeconômicas. Os irmãos apresentaram QV aferida pelo KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version significativamente pior em relação às crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico. Dinleyici *et al* (2020) utilizando o Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 também encontraram QV de irmãos com PC significativamente menor do que a de controles na Turquia. Rana *et al* (2015) correlacionaram a QV dos irmãos com a de seus irmãos com PC através da World Health Organization's Quality of Life Questionnaire na Índia, mas a QV dos irmãos não foi comparada com a de crianças com desenvolvimento típico, o que impede a comparação com os achados do presente estudo. Aran *et al* (2007) descreveram pontuações médias mais baixas de QV em irmãos de crianças com PC do que em pares da mesma idade no Child Health Questionnaire em Israel. No entanto, essas pontuações médias não foram comparadas para avaliar se as diferenças eram significativas.

As pontuações dos irmãos em todos os domínios do KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version foram significativamente menores do que as de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico, porém essas diferenças mostraram tamanhos de efeito pequenos, exceto para bem-estar psicológico, com tamanho de efeito médio. Dinleyici *et al* (2020) observaram saúde psicossocial de irmãos de crianças com PC significativamente inferior à dos controles. Rehn *et al* (1990) evidenciaram que irmãos de crianças alemãs com PC tinham prejuízo psicológico comparativamente aos irmãos de crianças saudáveis do grupo controle. Estudos realizados em Israel (Levy-Zaks *et al*, 2014) e na Hungria (Fejes *et al*, 2021) encontraram prevalências de doenças mentais mais elevadas em irmãos de crianças com PC do que na população geral naqueles países.

Não foram encontradas discrepâncias significativas entre a QV dos irmãos autorrelatada

e relatada pelos pais, respectivamente no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e no KIDSCREEN-27 Parent Version, exceto para o domínio apoio social e pares, em que a percepção dos irmãos foi significativamente mais positiva. Esta diferença poderia ser explicada por um excesso de confiança nas amizades por parte dos irmãos e por uma visão mais realista, madura ou até mesmo pessimista por parte dos pais. Em contraste, Dinleyici *et al* (2020) evidenciaram uma QV autorrelatada significativamente pior do que a relatada pelos pais.

A QV autorreferida pelos irmãos no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version foi significativamente pior com o aumento da idade dos irmãos e da sobrecarga dos cuidadores, e em famílias com dois responsáveis legais. Possivelmente, com o aumento da idade e da maturidade, mesmo com dois responsáveis presentes em casa, os irmãos tenham percebido o impacto da sobrecarga nos cuidadores, afetando assim a sua QV.

A QV dos irmãos relatada pelos pais no KIDSCREEN-27 Parent Version foi melhor e pior, respectivamente, à medida que a sobrecarga dos cuidadores e a QV da família aumentaram. É possível que os pais sentissem que, independentemente de outras características, as únicas influências na QV dos irmãos eram o quanto o cuidador estava sobrecarregado e como a família funcionava.

As variáveis funcionais, intelectuais e clínicas dos pacientes não foram significativamente correlacionadas com a QV relatada pelos próprios irmãos e pelos pais na presente amostra. Aran *et al* (2007) também não evidenciaram correlações significativas entre a QV dos irmãos e os níveis de GMFCS dos pacientes.

Nenhum destes artigos estudou as associações entre QV da família, sobrecarga dos cuidadores e QV dos irmãos. Os resultados do presente estudo mostram que a QV da família e a sobrecarga dos cuidadores podem ser extremamente importantes para a QV dos irmãos de crianças com PC. Dadas as influências mútuas entre os indivíduos de uma família, a QV dos irmãos também poderia ser influenciada e influenciar a QV dos pacientes com PC, hipóteses ainda a serem estudadas.

5.2 Amostra mielomeningocele

5.2.1 Qualidade de vida da família na mielomeningocele

Na amostra MMC, a maioria das famílias tinha dois responsáveis legais, era de alta renda, tinha alta escolaridade e predominantemente declararam alta QV da família segundo os

escores da Family Quality of Life Scale. Outros estudos chegaram a resultados diferentes. Wiegner e Donders (2000) utilizaram o Family Assessment Device em famílias de crianças norte-americanas com PC, MMC e outras deficiências de membros. Contudo, o estudo não teve como objetivo principal a análise da QV familiar, mas a utilizou como variável para explicar os níveis de sofrimento parental. Os três grupos exibiram o menor nível de funcionamento adaptativo, o que previu significativamente o nível de sofrimento parental. Como os objetivos primários dos estudos eram diferentes, não foi possível comparar os resultados. Nicolais *et al* (2016) também utilizaram o Family Assessment Device em famílias de crianças colombianas com MMC. As famílias descreveram uma empatia superior à amostra normativa, a maior parte delas era coesa, com boa comunicação familiar. No entanto, a maioria das famílias expressou uma satisfação familiar baixa ou muito baixa. Como seus resultados eram conflitantes, também achamos difícil compará-los com os nossos. Spaulding e Morgan (1986) não relataram nenhum impacto negativo na QV de famílias norte-americanas aferida na Family Environment Scale. Concordando com os achados do presente estudo, os autores também não encontraram associação significativa com a gravidade da deficiência motora da criança. Holmbeck *et al* (2002) constataram que as famílias norte-americanas de baixa renda eram menos coesas na Family Environment Scale. Na presente amostra, havia principalmente famílias de alta renda. A disparidade socioeconômica entre as amostras poderia explicar os diferentes resultados dos estudos. Simpson *et al* (2022) evidenciaram níveis mais elevados de funcionamento familiar das famílias norte-americanas com crianças com MMC no Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 Family Impact Mode do que nas famílias com crianças com outras condições crônicas de saúde e nas amostras de controle saudáveis. A Family Quality of Life Scale foi construída apenas para famílias com crianças com deficiência, por isso não a comparamos com famílias com crianças com outras condições ou com desenvolvimento típico.

Na presente amostra, a QV familiar foi significativamente menor à medida que aumentava a sobrecarga dos cuidadores, talvez pela redução de tempo e atenção dispensada à família. Variáveis funcionais e clínicas não se correlacionaram significativamente com a QV familiar.

Nenhum dos artigos encontrados na pesquisa bibliográfica estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores. Os resultados do presente estudo novamente reforçam a relevância das relações entre as dimensões sobrecarga do cuidador e QV da família.

5.2.2 Sobrecarga dos cuidadores na mielomeningocele

Assim como na amostra PC, todas as cuidadoras eram do sexo feminino, novamente seguindo predominantemente um modelo familiar patriarcal. A maioria das cuidadoras expressou baixa sobrecarga segundo os escores da Burden Interview. Todos os estudos encontrados que analisaram a sobrecarga do cuidador na MMC foram realizados no Brasil. Buoro e Nogueira (2020) também utilizaram a Burden Interview, e a maioria dos cuidadores foi classificada entre sem sobrecarga e com sobrecarga moderada. Cavalari *et al* (2017) e Valença *et al* (2012) aplicaram a Caregiver Burden Scale com, respectivamente, menor e maior nível de sobrecarga dos cuidadores. Na nossa amostra, os cuidadores apresentavam níveis socioeconômicos e educacionais mais elevados e os pacientes apresentavam menor frequência de incontinência fecal. Estas diferenças entre as amostras podem explicar a discrepância entre os nossos resultados e os de Valença *et al* (2012).

A sobrecarga dos cuidadores foi significativamente menor à medida que a QV da família aumentava. Variáveis funcionais e clínicas não se associaram significativamente à sobrecarga dos cuidadores. Valença *et al* (2012) encontraram associação significativa entre baixa renda e sobrecarga do cuidador. Buoro e Nogueira (2020) verificaram correlações significativas entre necessidade do CVIL e presença de incontinência fecal com sobrecarga do cuidador.

Outras variáveis que não foram incluídas no presente estudo, foram analisadas em outras pesquisas. Valença *et al* (2012) acharam associação significativa entre altos níveis de ansiedade e de depressão dos cuidadores com a sua sobrecarga. Buoro e Nogueira (2020) verificaram correlações significativas entre sobrecarga de trabalho, necessidade de maior auxílio para os cuidados gerais e ausência de acessibilidade com a sobrecarga dos cuidadores, e que todas as correlações entre QV e sobrecarga dos cuidadores foram negativas.

Nenhum destes artigos estudou a associação entre QV da família e sobrecarga dos cuidadores. Os resultados do presente estudo novamente reforçam a relevância das relações entre as dimensões sobrecarga do cuidador e QV da família.

5.2.3 Qualidade de vida dos irmãos na mielomeningocele

A amostra de irmãos de crianças e adolescentes com mielomeningocele e de crianças e adolescentes brasileiros com desenvolvimento típico foram pareadas por idade (10 a 15 anos), com características socioeconômicas comparáveis. Os irmãos experimentaram uma QV autorreferida significativamente pior em relação aos pares brasileiros com desenvolvimento

típico, exceto nos domínios autonomia e relacionamento com os pais e apoio social e pares no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version. Ou seja, apesar da QV globalmente prejudicada, a autonomia dos irmãos e as relações sociais com os pais e pares foram preservadas. Provavelmente, os irmãos perceberam que a sobrecarga gerava menos tempo de atenção parental, e não uma preferência dos pais entre irmãos, levando a um sentimento de confiança em relação aos pais.

Não houve discrepância significativa entre a QV relatada pelos próprios irmãos e pelos pais respectivamente no KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version e no KIDSCREEN-27 Parent Version, exceto no domínio apoio social e pares, em que a percepção dos irmãos foi mais positiva. Estes resultados mostram que apesar da sobrecarga dos pais, estes conseguiram perceber as características dos seus filhos em diferentes dimensões. A diferença encontrada no apoio social e no relacionamento com os pares deriva provavelmente de uma percepção mais confiante dos irmãos nas suas amizades, em contraste com uma opinião mais madura ou mesmo pessimista dos pais.

A QV autorreferida dos irmãos KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version foi significativamente pior conforme a idade dos irmãos aumentava e melhor com níveis elevados de QV familiar. A QV dos irmãos relatada pelos pais no KIDSCREEN-27 Parent Version foi significativamente pior com o aumento dos níveis de sobrecarga do cuidador e significativamente melhor à medida que a QV da família aumentava. Variáveis funcionais e clínicas não se correlacionaram significativamente com a QV dos irmãos. É possível que os pais sentissem que as únicas influências na QV dos irmãos eram o quanto o cuidador estava sobrecarregado e como a família funcionava.

Na pesquisa bibliográfica realizada para este estudo, não foram encontradas referências à QV dos irmãos de crianças e adolescentes com MMC, o que impediu que pudéssemos comparar os presentes resultados com os de outras amostras.

Assim como na amostra PC, os achados deste estudo mostram que a QV da família e a sobrecarga dos cuidadores podem ser extremamente importantes para a QV dos irmãos de crianças com MMC. Dadas as influências mútuas entre os indivíduos de uma família, a QV dos irmãos também poderia ser influenciada e influenciar a QV dos pacientes, hipóteses ainda a serem estudadas.

5.3. Limitações e pontos fortes do estudo

Este foi um estudo de centro único, realizado com uma amostra de conveniência, portanto, não podemos generalizar os presentes resultados. A natureza transversal dos dados disponíveis impede qualquer declaração de causalidade. A lacuna da literatura em relação aos estudos sobre QV familiar e QV de irmãos em famílias com crianças com PC e com MMC, as metodologias variadas, os diversos instrumentos utilizados nesses estudos e as diferenças socioeconômicas e culturais entre os países onde foram realizados, reduziram as possibilidades de comparações, por isso tivemos de focar principalmente na interpretação de nossos próprios resultados. Na amostra MMC, o CVIL e a incontinência fecal foram escolhidos como indicadores clínicos dos pacientes, pois são necessidades das crianças que acarretam uma carga de trabalho diária para os cuidadores. Outras características clínicas, como hospitalizações e o envolvimento de outros sistemas, também impactam a carga e a QV, mas não diariamente. O fato de nos basearmos apenas nesses dois indicadores para analisar a associação das características clínicas foi frágil e não permitiu resultados conclusivos.

O ponto forte do estudo é o seu caráter inovador ao investigar a QV dos irmãos e as associações entre sobrecarga dos cuidadores, QV da família e QV dos irmãos em famílias de crianças com PC e com MMC e as suas correlações com diversas variáveis. Os nossos resultados trazem informações inéditas no Brasil sobre as correlações entre as dimensões estudadas. Tais informações podem influenciar a confecção de novas políticas públicas de diretrizes de cuidados para os pacientes com PC e com MMC, para seus cuidadores, e principalmente, para as suas famílias e para os seus irmãos.

CONCLUSÃO

A PC é a deficiência física mais comum da infância (Novak *et al*, 2020; Sadowska *et al*, 2020; Vitrikas, 2020) e a MMC é uma das malformações congênitas mais comuns (Adzick, 2010; Copp *et al*, 2015; Şeker Abanoz *et al*, 2020). A família é o ambiente mais imediato para o crescimento e para a socialização da criança (Ljubičić *et al*, 2022), e a relação entre irmãos é a mais longa da vida humana (Relva *et al*, 2019). Os resultados deste estudo reforçam a relevância de conhecermos os fatores que influenciam a sobrecarga dos cuidadores, a QV da família e a QV dos irmãos na PC e na MMC e a necessidade de novas e mais aprofundadas pesquisas nessas áreas do conhecimento. Os achados do presente estudo podem fornecer bases para a construção de programas de apoio a toda a família (não apenas aos cuidadores/pais), visando reduzir a sobrecarga dos cuidadores, melhorar a QV familiar e atender às necessidades individuais dos irmãos. Futuros estudos multicêntricos podem validar a generalização dos presentes resultados.

REFERÊNCIAS

ADZICK, N. S. Fetal myelomeningocele: natural history, pathophysiology, and in-utero intervention. **Seminars in Fetal and Neonatal Medicine**, v. 15, n. 1, p. 9-14, 2010. DOI 10.1016/j.siny.2009.05.002.

ADZICK, N. S. Fetal surgery for myelomeningocele: trials and tribulations: Isabella Forshall Lecture. **Journal of Pediatric Surgery**, v. 47, n. 2, p. 273-281, 2012. DOI 10.1016/j.jpedsurg.2011.11.021.

ALDERFER, M. A.; LONG, K. A.; LOWN, E. A.; MARSLAND, A. L.; OSTROWSKI, N. L.; HOCK, J. M.; EWING, L. J. Psychosocial adjustment of siblings of children with cancer: a systematic review. **Psychooncology**, v. 19, n. 8, p. 789-805, 2010. DOI 10.1002/pon.1638.

AMERICAN PSYCHIATRIC ASSOCIATION. **DSM-5**: manual diagnóstico e estatístico de transtornos mentais. Porto Alegre: Artmed, 2014.

ARAN, A.; SHALEV, R. S.; BIRAN, G.; GROSS-TSUR, V. Parenting style impacts on quality of life in children with cerebral palsy. **The Journal of Pediatrics**, v. 151, n. 1, p. 56-60, 2007.

BARANELLO, G.; SIGNORINI, S.; TINELLI, F.; GUZZETTA, A.; PAGLIANO, E.; ROSSI, A.; FOSCAN, M.; TRAMACERE, I.; ROMEO, D. M. M.; RICCI, D.; VFCS STUDY GROUP. Visual Function Classification System for children with cerebral palsy: development and validation. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 62, n. 1, p. 104-110, 2020. DOI 10.1111/dmcn.14270.

BARROSO, S. M.; BANDEIRA, M. Sobrecarga de familiares de pacientes psiquiátricos atendidos na rede pública. **Archives of Clinical Psychiatry**, São Paulo, v. 34, n. 6, p. 270-277, 2007.

BARUTCU, A.; BARUTCU, S.; KOLKIRAN, S.; OZDENER, F. Evaluation of anxiety, depression and burden on caregivers of children with cerebral palsy. **Developmental Neurorehabilitation**, v. 24, n. 8, p. 555-560, 2021. DOI 10.1080/17518423.2021.1917718.

BRACCIALLI, L. M.; ALMEIDA, V. S.; SANKAKO, A. N.; SILVA, M. Z.; BRACCIALLI, A. C.; CARVALHO, S. M.; MAGALHÃES, A. T. Translation and validation of the Brazilian version of the Cerebral Palsy Quality of Life Questionnaire for Children: child report. **Jornal de Pediatria, Rio de Janeiro**, v. 92, n. 2, 143-148, 2016. DOI 10.1016/j.jpeds.2015.05.005.

BAX, M.; GOLDSTEIN, M.; ROSENBAUM, P.; LEVITON, A.; PANETH, N.; DAN, B.; JACOBSSON, B.; DAMIANO, D.; EXECUTIVE COMMITTEE FOR THE DEFINITION OF CEREBRAL PALSY. Proposed definition and classification of cerebral palsy.

Developmental Medicine and Child Neurology, v. 47, n. 8, p. 571-576, 2005. DOI 10.1017/S001216220500112X 6.

BELLIN, M. H.; KOVACS, P. Fostering resilience in siblings of youths with a chronic health condition: a review of the literature. **Health and Social Work**, v. 31, n. 3, p. 209-216, 2006. DOI 10.1093/hsw/31.3.209.

BEVILACQUA, N. S.; PEDREIRA, D. A. Fetoscopy for meningomyelocele repair: past, present and future. **Einstein**, São Paulo, v. 13, n. 2, p. 283-289, 2015. DOI 10.1590/S167945082015RW3032.

BOEHM, T. L.; CARTER, E. W. Family quality of life and its correlates among parents of children and adults with intellectual disability. **American Journal of Intellectual and Developmental Disabilities**, v. 124, n. 2, p. 99-115, 2019. DOI 10.1352/1944-7558-124.2.99.

BUORO, R. S.; NOGUEIRA, M. P. Quality of life and challenges of family members of children with meningomyelocele. **Acta Ortopédica Brasileira**, v. 28, n. 6, p. 291-295, 2020. DOI 10.1590/1413-785220202806237160.

CAMARGOS, A. C. R.; LACERDA, T. T. B.; VIANA, S. O., PINTO, L. R. A., FONSECA, M. L. S. Avaliação da sobrecarga do cuidador de crianças com paralisia cerebral através da escala Burden Interview. **Revista Brasileira de Saúde Materno Infantil**, v. 9, n. 1, p. 31-37, 2009. Disponível em: <https://www.scielo.br/j/rbsmi/a/DwGF8XGCPM7DBWLqzvQfRsd/>. Acesso em: 21 mar. 2021.

CANS C.; DOLK, H.; PLATT, M. J.; COLVER, A.; PRASAUSKIENE A.; KRAGELOH-MANN, I.; SCPE COLLABORATIVE GROUP. Recommendations from the SCPE collaborative group for defining and classifying cerebral palsy. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 109, p. 35-38, 2007. Suplemento.

CAVALARI, K. N.; HAMAMOTO FILHO, P. T.; CALDEIRA, S. M.; NUNES, H. R. C.; LIMA, F. M. A.; AVILA, M. A. G. Functional independence of children with myelomeningocele: is it associated with the informal caregivers' burden? **Journal of Pediatric Nursing**, v. 36, p. 232-235, 2017. DOI 10.1016/j.pedn.2017.07.005.

CHÁVEZ ANDRADE, C. P. Análisis de los factores relacionados con la carga del cuidador de personas con parálisis cerebral. **Rehabilitación**, Madrid, v. 55, n. 1, p. 8-14, 2021. DOI 10.1016/j.rh.2020.04.003.

CHRISTENSEN, C.; LOWES, L. P. Treadmill training for a child with spina bifida without functional ambulation. **Pediatric Physical Therapy**, v. 26, n. 2, p. 265-273, 2014. DOI 10.1097/PEP.0000000000000029.

COPP, A. J.; ADZICK, N. S.; CHITTY, L. S.; FLETCHER, J. M.; HOLMBECK, G. N.; SHAW, G. M. Spina bifida. **Nature Review Disease Primers**, v. 1, 15007, 2015. DOI 10.1038/nrdp.2015.7.

COSTA, D. D.; PITREZ, P. M.; BARROSO, N. F.; RONCADA, C. Asthma control in the quality of life levels of asthmatic patients' caregivers: a systematic review with meta-analysis and metaregression. **Jornal de Pediatria**, Rio de Janeiro, v. 95, p. 401-409, 2019. DOI 10.1016/j.jped.2018.10.010.

ASSOCIAÇÃO BRASILEIRA DE EMPRESAS DE PESQUISA. **Critério Brasil de classificação econômica**. São Paulo: ABEP, 2022. Disponível em: <https://www.abep.org/criterio-brasil>. Acesso em: 22 mar. 2021.

DALLAS, E.; STEVENSON, J.; MCGURK, H. Cerebral-palsied children's interactions with siblings—I: influence of severity of disability, age and birth order. **Journal of Child Psychology and Psychiatry, and Allied Disciplines**, v. 34, n. 5, p. 621-647, 1993. DOI 10.1111/j.1469-7610.1993.tb01062.x.

DALLAS, E.; STEVENSON, J.; MCGURK, H. Cerebral-palsied children's interactions with siblings—II: interactional structure. **Journal of Child Psychology and Psychiatry, and Allied Disciplines**, v. 34, n. 5, p. 649-671, 1993. DOI 10.1111/j.1469-7610.1993.tb01063.x.

DANZER, E.; JOYEUX, L.; FLAKE, A. W.; DEPREST, J. Fetal surgical intervention for myelomeningocele: lessons learned, outcomes, and future implications. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 62, n. 4, p. 417-425, 2020. DOI 10.1111/dmcn.14429.

DENNIS, M.; BARNES, M. A. The cognitive phenotype of spina bífida meningomyelocele. **Developmental Disabilities Research Reviews**, v. 16, n. 1, p. 31-39, 2010. DOI 10.1002/ddrr.89.

DENNIS, M.; LANDRY, S. H.; BARNES, M.; FLETCHER, J. M. A model of neurocognitive function in spina bifida over the life span. **Journal of the International Neuropsychological Society**, v. 12, n. 2, p. 285-296, 2006. DOI 10.1017/S1355617706060371.

DINLEYICI, M.; ÇARMAN, K. B.; ÖZDEMİR, C.; HARMANCI, K.; EREN, M.; KIREL, B.; ŞİMSEK, E.; YARAR, C.; ÇAMURDAN, A. D.; DAGLI, F. S. Quality of life evaluation of healthy siblings of children with chronic illness. **Balkan Medical Journal**, v. 37, n. 1, p. 34-42, 2019. DOI 10.4274/balkanmedj.galenos.2019.2019.7.142.

DOBHALL, M.; JUNEJA, M.; JAIN, R.; SAIRAM, S.; THIAGARAJAN, D. Health-related quality of life in children with cerebral palsy and their families. **Indian Pediatrics**, v. 51, n. 5, p. 385-387, 2014. DOI 10.1007/s13312-014-0414-z.

DOGBE, J. A.; KYEREMATEN, J. D. A.; OPOKU, M. P.; NKETSIA, W.; HAMMOND, C. 'There is family tension, but they understand...': familial and sibling relationships following the diagnosis of cerebral palsy in children in Ghana. **International Journal of Developmental Disabilities**, v. 68, n. 1, p. 35-46, 2019. DOI 10.1080/20473869.2019.1573572.

DROOGMANS, G.; VERGAELLEN, E.; VAN BUGGENHOUT, G.; SWILLEN, A. Stressed parents, happy parents. An assessment of parenting stress and family quality of life in families with a child with Phelan-McDermid syndrome. **Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities**, v. 34, n. 4, p. 1076-1088, 2021. DOI 10.1111/jar.12858.

DUFFY, L. V.; VESSEY, J. A. A randomized controlled trial testing the efficacy of the creating opportunities for parent empowerment program for parents of children with epilepsy and other chronic neurological conditions. **Journal of Neuroscience Nursing**, v. 48, n. 3, p. 166-174, 2016. DOI 10.1097/JNN.0000000000000199.

ELIASSON, A. C.; SUNDHOLM, L. K.; ROSBLAD, B.; BECKUNG, E.; ARNER, M.; OHRVALL, A. M.; ROSENBAUM, P. The Manual Ability Classification System (MACS) for children with cerebral palsy: scale development and evidence of validity and reliability. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 48, n. 7, p. 549-554, 2007. DOI 10.1017/S0012162206001162.

FARAJZADEH, A.; MAROUFIZADEH, S.; AMINI, M. Factors associated with quality of life among mothers of children with cerebral palsy. **International Journal of Nursing Practice**, v. 26, n. 3, e12811, 2020. DOI 10.1111/ijn.12811.

FARIAS JUNIOR, J. C.; LOCH, M. R.; LIMA NETO, A. J.; SALES, J. M.; FERREIRA, F. E. L. L. Reprodutibilidade, consistência interna e validade de construto do KIDSCREEN-27 em adolescentes brasileiros. **Cadernos de Saúde Pública**, v. 33, n. 9, e00131116, 2017. DOI 10.1590/0102-311X00131116.

FAYED, N.; CAMARGO, O. K.; KERR, E.; ROSENBAUM, P.; DUBEY, A.; BOSTAN, C.; FAULHABER, M.; RAINA, P.; CIEZA, A. Generic patient-reported outcomes in child health research: a review of conceptual content using World Health Organization definitions. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 54, n. 12, p. 1085-1095, 2012. DOI 10.1111/j.1469-8749.2012.04393.x.

FEJES, M.; VARGA, B.; HOLLODY, K. [The impact of disease and sociodemographic background on children suffering from cerebral palsy]. **Orvosi Hetilap**, v. 162, n. 7, p. 269-279, 2021. DOI 10.1556/650.2021.31990.

FERREIRA, M. C.; NACCIO, B. L.; OTSUKA, M. Y. C.; BARBOSA, A. M.; CORRÊA, P. F. L.; GARDENGHI, G. Avaliação do índice de sobrecarga de cuidadores primários de crianças com paralisia cerebral e sua relação com a qualidade de vida e aspectos sócioeconômicos.

Acta Fisiátrica, v. 22, n. 1, p. 9-13, 2015. Disponível em:

<https://www.revistas.usp.br/actafisiatrica/article/view/103894>. Acesso em: 9 abr. 2024.

FISHER, R. S.; ACEVEDO, C.; ARZIMANOGLU, A.; BOGACZ, A.; Cross, J. H.; ELGER, C. E.; ENGEL JUNIOR, J.; FORSGREN, L.; FRENCH, J. A.; GLYNN, M.; HESDORFFER, D. C.; LEE, B. I.; MATHERN, G. W.; MOSHÉ, S. L.; PERUCCA, E.; SCHEFFER, I. E.; TOMSON, T.; WATANABE, M.; WIEBE, S. ILAE official report: a practical clinical definition of epilepsy. **Epilepsia**, v. 55, n. 4, p. 475-482, 2014. DOI 10.1111/epi.12550.

FLETCHER, J. M.; COPELAND, K.; FREDERICK, J. A.; BLASER, S. E.; KRAMER, L. A.; NORTHRUP, H.; HANNAY, H. J.; BRANDT, M. E.; FRANCIS, D.J.; VILLARREAL, G.; DRAKE, J. M.; LAURENT, J. P.; TOWNSEND, I.; INWOOD, S.; BOUDOUSQUIE, A.; DENNIS, M. Spinal lesion level in spina bifida: a source of neural and cognitive heterogeneity. **Journal of Neurosurgery**, v. 102, n. 3, p. 268-279, 2005. DOI 10.3171/ped.2005.102.3.0268. Suplemento.

FREEBORN, D.; KNAFL, K. Growing up with cerebral palsy: perceptions of the influence of family. **Child: Care, Health and Development**, v. 40, n. 5, p. 671-679, 2014. DOI 10.1111/cch.12113.

GLINAC, A.; MATOVIC, L.; DELALIC, A.; MESALIC, L. Quality of life in mothers of children with cerebral palsy. **Acta Clinica Croatica**, v. 56, n. 2, p. 299-307, 2017. DOI 10.20471/acc.2017.56.02.14.

GRILLO, E.; SILVA, R. J. Defeitos do tubo neural e hidrocefalia congênita: por que conhecer suas prevalências? **Jornal de Pediatria**, Rio de Janeiro, v. 79, n. 2, p. 105-106, 2003.

GUEDES, D. P.; GUEDES, J. E. Translation, cross-cultural adaptation and psychometric properties of the KIDSCREEN-52 for the Brazilian population. **Revista Paulista de Pediatria**, v. 29, p. 364-371, 2011.

GUGALA, B. Caregiver burden versus intensity of anxiety and depression symptoms in parents of children with cerebral palsy as well as factors potentially differentiating the level of burden: a cross-sectional study (Poland). **BMJ Open**, v. 11, n. 6, e036494, 2021. DOI 10.1136/bmjopen-2019-036494.

HARRIS, S.; MAMDANI, M.; JORGENSEN, C. B. G.; BOGELUND, M.; GUNDGAARD, J.; GROLEAU, D. The effect of hypoglycemia on health-related quality of life: Canadian results from a multinational time trade-off survey. **Canadian Journal of Diabetes**, v. 38, n. 1, p.45-52, 2014. DOI 10.1016/j.cjcd.2013.09.001.

HETHERINGTON, R.; DENNIS, M.; BARNES, M.; DRAKE, J.; GENTILI, F. Functional outcome in young adults with spina bífida and hydrocephalus. **Childs Nervous System**, v. 22, n. 2, p. 117-124, 2006. DOI 10.1007/s00381-005-1231-4.

HIDECKER M. J.; PANETH, N.; ROSENBAUM, P. L.; KENT, R. .D; LILLIE, J.; EULENBERG, J. B.; CHESTER JUNIOR, K.; JOHSON, B.; MICHALSEN, L.; EVATT, M.; TAYLOR, K.; Developing and validating the Communication Function Classification System for individuals with cerebral palsy. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 53, n. 8, p. 704-710, 2011. DOI 10.1111/j.1469-8749.2011.03996.x.

HIRATUKA, E.; MATSUKURA, T. S.; PFEIFER, L. I. Cross-cultural adaptation of the Gross Motor Function Classification System into Brazilian-Portuguese (GMFCS). **Revista Brasileira de Fisioterapia**, v. 14, n. 6, p. 537-544, 2010.

HOFFER, M. M.; FEIWELL, E.; PERRY, R.; PERRY, J.; BONNETT, C. Functional ambulation in patients with myelomeningocele. **The Journal of Bone and Joint Surgery. American Volume**, v. 55, n. 1, p. 137-148, 1973.

HOFFMAN, L.; MARQUIS, J.; POSTON, D.; SUMMERS, J. A.; TURNBULL, A. Assessing family outcomes: psychometric evaluation of the Beach Center Family Quality of Life Scale. **Journal of Marriage and Family**, n. 4, p. 1069-1083, 2006.

HOLMBECK, G. N.; COAKLEY, R. M.; HOMMEYER, J. S.; SHAPER, W. E.; WESTHOVEN, V. C. Observed and perceived dyadic and systemic functioning in families of preadolescents with spina bifida. **Journal of Pediatric Psychology**, v. 27, n. 2, p. 177-189, 2002. DOI 10.1093/jpepsy/27.2.177.

HUEBNER, E. S.; SULDO, S. M.; SMITH, L. C.; MCKNIGHT, C. G. Life satisfaction in children and youth: empirical foundations and implications for school psychologists. **Psychology in the Schools**, v. 41, n. 1, p. 81-93, 2004. DOI 10.1002/pits.10140.

IDDON, J. L.; MORGAN, D. J.; LOVEDAY, C.; SAHAKIAN, B. J.; PICKARD, J. D. Neuropsychological profile of young adults with spina bífida with or without hydrocephalus. **Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry**, v. 75, n. 8, p. 1112-1118, 2004. DOI 10.1136/jnnp.2003.029058.

JORGE, B. M.; LEVY, C. C.; GRANATO, L. Cultural Adaptation Quality of Family Life Scale for the Brazilian Portuguese. **Codas**, v. 27, n. 6, p. 534-540, 2015. DOI 10.1590/2317-1782/20152014142.

KIBURZ, J. A. Perceptions and concerns of the school-age siblings of children with myelomeningocele. **Issues in Comprehensive Pediatric Nursing**, v. 17, n. 4, p. 223-231, 1994. DOI 10.3109/01460869409078307.

KIM, M.; PARK, C.; JEON, H.; CHOI, W. J.; YOU, S. J. H. Comparative effects of community-based family-child-centered care and conventional pediatric rehabilitation for cerebral palsy. **NeuroRehabilitation**, v. 49, n. 4, p. 533-546, 2021. DOI 10.3233/NRE-210219.

KOLTUNIUK, A.; ROZENSZTRAUCH, A.; BUDZINSKA, P.; ROSICZUK, J. The quality of life of Polish children with cerebral palsy and the impact of the disease on the family functioning. **Journal of Pediatric Nursing**, v. 47, e75-e82, 2019. DOI 10.1016/j.pedn.2019.05.011.

KOPPEN, I. J.; GONTARD, A.; CHASE, J.; COOPER, C. S.; RITTIG, C. S.; BAUER, S. B.; HOMSY, Y.; YANG, S. S.; BENNINGA, M. A. Management of functional nonretentive fecal incontinence in children: recommendations from the International Children's Continence Society. **Journal of Pediatric Urology**, v. 12, n. 1, p. 56-64, 2016. DOI 10.1016/j.jpurol.2015.09.008.

MENSAH, K. K.; NUAMAH, N. D.; WEMAKOR, S.; AGORINYA, J.; SEIDU, R.; DICKENS, C. M.; BATEMAN, A. Assessment tools for executive function and adaptive function following brain pathology among children in developing country contexts: a scoping review of current tools. **Neuropsychological Review**, v. 32, n. 3, p. 459-482, 2022. DOI 10.1007/s11065-021-09529-w..

LEE, M. H.; MATTHEWS, A. K.; PARK, C. Determinants of health-related quality of life among mothers of children with cerebral palsy. **Journal of Pediatric Nursing**, v. 44, p. 1-8, 2019. DOI 10.1016/j.pedn.2018.10.001.

ZAKS, A. L.; POLLAK, Y.; PAZI, H. B. Cerebral palsy risk factors and their impact on psychopathology. **Neurological Research**, v. 36, n. 1, p. 92-94, 2014. DOI 10.1179/1743132813Y.0000000290.

LIMA, Fernanda Marinho de. **Avaliação inicial do trato urinário inferior de crianças com mielomeningocele submetidas à correção intrauterina e pós-natal**. 2023. Dissertação (Mestrado) – Faculdade de Ciências Médicas, Universidade do Estado do Rio de Janeiro, Rio de Janeiro, 2023.

LINDQUIST, B.; UVEBRANT, P.; REHN, E.; CARLSSON, G. Cognitive functions in children with myelomeningocele without hydrocephalus. **Childs Nervous System**, v. 25, n. 8, p. 969-975, 2009. DOI 10.1007/s00381-009-0843-5.

LJUBICIC, M.; DELIN, S.; KOLCIC, I. Family and individual quality of life in parents of children with developmental disorders and diabetes type 1. **Journal of Clinical Medicine**, v. 11, n. 10, p. 2861, 2022. DOI 10.3390/jcm11102861.

LUZ, C. L.; MOURA, M. C. D. S.; BECKER, K. K.; TEIXEIRA, R. A. A.; VOOS, M. C.; HASUE, R. H. The relationship between motor function, cognition, independence and quality of life in myelomeningocele patients. **Arquivos de Neuro-Psiquiatria**, v. 75, n. 8, p. 509-514, 2017. DOI 10.1590/0004-282X20170088.

LYNCH, A.; RYU, J. C.; AGRAWAL, S.; GALLOWAY, J. C. Power mobility training for a 7-month-old infant with spina bifida. **Pediatric Physical Therapy**, v. 21, n. 4, p. 362-368, 2009. DOI 10.1097/PEP.0b013e3181bfae4c.

MACEDO JUNIOR, A.; LEAL, M.; RONDON, A.; ORTIZ, V.; MORON, A. F.; CAVALHEIRO, S. Urological evaluation of patients that had undergone in utero myelomeningocele closure: a prospective assessment at first presentation and early follow-up. Do their bladder benefit from it? **Neurourology and Urodynamics**, v. 34, n. 5, p. 461-464, 2015. DOI 10.1002/nau.22576.

EVANS, J. M.; DARRAJ, J.; PAIN, K.; ADKINS, R.; KRATOCHVIL, M. Are families with adolescents and young adults with cerebral palsy the same as other families? **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 43, n. 7, p. 466-472, 2001. DOI 10.1017/s0012162201000858.

MARCIANO, A. R.; SCHEUER, C. I. Quality of Life in siblings of autistic patients. **Brazilian Journal of Psychiatry**, v. 27, n. 1, p. 67-69, 2005. DOI 10.1590/s1516-44462005000100015.

MARQUES, A. K. M. C.; LANDIM, F. L. P.; COLLARES, P. M.; MESQUITA, R. B. Apoio social na experiência do familiar cuidador. **Ciência e Saúde Coletiva**, v. 16, p. 945-955, 2011. Suplemento.

MOYSON, T.; ROEYERS, H. 'The overall quality of my life as a sibling is all right, but of course, it could always be better': quality of life of siblings of children with intellectual disability: the siblings' perspectives. **Journal of Intellectual Disability Research**, v. 56, n. 1, p. 87-101, 2012. DOI 10.1111/j.13652788.2011.01393.x.

MURRAY, J.S. Siblings of children with cancer: a review of the literature. **Journal of Pediatric Oncology Nursing**, v. 16, n. 1, p. 25-34, 1999. DOI 10.1177/104345429901600104.

NICOLAIS, C. J.; PERRIN, P. B.; PANYAVIN, I.; NICHOLLS, E. G.; PLAZA, S. L. O.; QUINTERO, L. M.; LASPRILLA, J. C. A. Family dynamics and psychosocial functioning in children with SCI/D from Colombia, South America. **The Journal of Spinal Cord Medicine**, v. 39, n. 1, p. 58-66, 2016. DOI 10.1179/2045772314Y.0000000291.

NOVAK, I. Evidence-based diagnosis, health care, and rehabilitation for children with cerebral palsy. **Journal of Child Neurology**, v. 29, n. 8, p. 1141-1156, 2014. DOI 10.1177/0883073814535503.

NOVAK, I.; MORGAN, C.; FAHEY, M.; EDMONDSON, M. F.; GALEA, C.; HINES, A.; LANGDON, K.; NAMARA, M. M.; PATON, M. C.; POPAT, H.; SHORE, B.; KHAMIS, A.; STANTON, E.; FINEMORE, O. P.; TRICKS, A.; TE VELDE, A.; DARK, L.; MORTON, N.; BADAWI, N. State of the evidence traffic lights 2019: systematic review of interventions for preventing and treating children with cerebral palsy. **Current Neurology and Neuroscience Report**, v. 20, n. 2, p. 3, 2020. DOI 10.1007/s11910-020-1022-z.

NUNES, A. K. M.; ROCHA, Y. D.; COSTA, I. C. B. F.; GOLINELEO, M. T. B.; LEANDRO, R. I. S.; MAIA, J. A. Análise do nível de sobrecarga física e mental do cuidador de crianças com paralisia cerebral. **Brazilian Journal of Development**, v. 7, n. 8, p. 84422-84433, 2021. Disponível em: <https://brazilianjournals.com/ojs/index.php/BRJD/article/view/35042>. Acesso em: 11 ago. 2022.

O' BRIEN, I.; DUFFY, A.; NICHOLL, H. Impact of childhood chronic illnesses on siblings: a literature review. **British Journal of Nursing**, v. 18, n. 22, p. 1358-1365, 2009. DOI 10.12968/bjon.2009.18.22.45562.

OLIVEIRA, A. R.; GONGALVEZ, G. R.; LOFFRED, M. D. C. M.; GRECCO, L. H. Avaliação da sobrecarga dos cuidadores informais através da Escala Burden interview atendidos durante o estágio de fisioterapia em Saúde Coletiva. **Revista de Atenção à Saúde**, v. 16, n. 58, p. 75-83, 2019.

ONG, A. W. H.; TAN, C. S. Structure of the Sibling Inventory of Differential Experience-Chinese Version (SIDECE): a bifactor model approach. **Jurnal Psikologi Malaysia**, v. 32, n. 1, p. 30-38, 2018.

OSKOU, M.; COUTINHO, F.; DYKEMAN, J.; JETTE, N.; PRINGSHEIM, T. An update on the prevalence of cerebral palsy: a systematic review and meta-analysis. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 55, n. 6, p. 509-519, 2013. DOI 10.1111/dmcn.12080.

OZKAN, Y. Child's quality of life and mother's burden in spastic cerebral palsy: a topographical classification perspective. **Journal of International Medical Research**, v. 46, n. 8, p. 3131-3137, 2018. DOI 10.1177/0300060518772758.

PALISANO, R.; ROSESENBAUM, P.; WALTER, S.; RUSSELL, D.; WOOD, E.; GALUPPI, B. Development and reliability of a system to classify gross motor function of children with cerebral palsy. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 39, n. 4, p. 214-223, 1997. DOI 10.1111/j.1469-8749.1997.tb07414.x.

POSTON, D.; TURNBULL, A.; PARK, J.; MANNAN, H.; MARQUIS, J.; Wang, M. Family quality of life: a qualitative inquiry. **Mental Retardation**, v. 41, n. 5, p. 313-328, 2003. DOI 10.1352/00476765(2003)41<313:FQOLAQ>2.0.CO;2.

RANA, P.; MISHRA, D. Quality of life of unaffected siblings of children with chronic neurological disorders. **Indian Journal of Pediatrics**, v. 82, n. 6, p. 545-548, 2015. DOI 10.1007/s12098-014 1672-4.

RASQUIN, A.; DI LORENZO, C.; FORBES, D.; GUIRALDES, E.; HYAMS, J. S.; STAIANO, A.; WALKER, L. S. Childhood functional gastrointestinal disorders: child/adolescent. **Gastroenterology**, v. 130, n. 5, p. 1527-1537, 2006. DOI 10.1053/j.gastro.2005.08.063.

SIEBERER, U. R.; AUQUIER, P.; ERHART, M.; GOSCH, A.; RAJMIL, L.; BRUIL, J.; POWER, M.; DUER, W.; CLOETTA, B.; CZEMY, L.; MAZUR, J.; CZIMBALMOS, A.; TOUNTAS, Y.; HAGQUIST, C.; KILROE, J.; EUROPEAN KIDSCREEN GROUP. The KIDSCREEN-27 quality of life measure for children and adolescents: psychometric results from a cross-cultural survey in 13 European countries. **Quality of Life Research**, v. 16, n. 8, p. 1347-1356, 2007. DOI 10.1007/s11136-007-9240-2.

SIEBERER, U. R.; BULLINGER, M. Assessing health-related quality of life in chronically ill children with the German KINDL: first psychometric and content analytical results. **Quality of Life Research**, v. 7, n. 5, p. 399-407, 1998. DOI 10.1023/a:1008853819715.

SIEBERER, U. R.; ERHART, M.; RAJMIL, L.; HERDMAN, M.; AUQUYUIER, P.; BRUIL, J.; POWER, M.; DUER, W.; ABEL, T.; CZEMY, L.; MAZUR, J.; CZIMBALMOS, A.; TOUNTAS, Y.; HAGQUIST, C.; KILROE, J.; EUROPEAN KIDSCREEN GROUP. Reliability, construct and criterion validity of the KIDSCREEN-10 score: a short measure for children and adolescents' well-being and health-related quality of life. **Quality of Life Research**, v. 19, n. 10, p. 1487-1500, 2010. DOI 10.1007/s11136-010-9706-5.

SIEBERER, U. R.; GOSCH A.; RAJMIL, L.; ERHART, M.; BRUIL, J.; DUER, W.; AUQUIER, P.; POWER, M.; ABEL, T.; CZEMY, L.; MAZUR, J.; CZIMBALMOS, A.; TOUNTAS, Y.; HAGQUIST, C.; KILROE, J.; KIDSCREEN GROUP E. KIDSCREEN-52 quality-of-life measure for children and adolescents. **Expert Review of Pharmacoeconomics and Outcomes Research**, v. 5, n. 3, p. 353-364, 2005. DOI 10.1586/14737167.5.3.353.

REHN, E.; EYE, A. Geschwister zerebralaparetischer Kinder: eine Parallelstichproben-KFA ihrer Befindlichkeit. **Zeitschrift für klinische Psychologie, Psychopathologie und Psychotherapie**, v. 38, n.3, p. 245-252, 1990.

RELVA, I. C.; ALARCÃO, M.; FERNANDES, O. M.; BERMANN, S. G. Quality of sibling relationship and parental differential treatment in a sample of Portuguese adolescents. **Análise Psicológica**, v. 37, n. 3, p. 341-353, 2019. DOI 10.14417/ap.1645.

ROBITAIL, S.; SIEBERER U. R.; SIMEONI, M. C.; RAJMIL, L.; BRUIL, J.; POWER, M.; DUER, W.; CLOETTA, B.; CZEMY, L.; MAZUR, J.; CZIMBALMOS, A.; TOUNTAS, Y.; HAGQUIST, C.; KILROE, J.; AUQUIER, P.; KIDSCREEN GROUP. Testing the structural and cross-cultural validity of the KIDSCREEN27 quality of life questionnaire. **Quality of Life Research**, v. 16, n. 8, p. 1335-1345, 2007. DOI 10.1007/s11136-007-9241-1.

ROEBROECK, M. E.; HEMPENIUS, L.; BAALEN, B.; HENDRIKSEN, J. G.; EMONS, H. J. B.; STAM, H. J. Cognitive functioning of adolescents and young adults with mening myelocele and level of everyday physical activity. **Disability and Rehabilitation**, v. 28, n. 20, p. 1237-1242, 2006. DOI 10.1080/09638280600551716.

ROFAIL, D.; MAGUIRE, L.; HEELIS, R.; COLLIGS, A.; LINDEMANN, M.; ABETZ, L. The impact of spina bifida on caregivers. **Neurology and Therapy**, v. 1, n. 1, p. 4, 2012. DOI 10.1007/s40120-012-0004-8.

RONEN, G. M.; ROSENBAUM, P. L.; BOYLE, M. H.; STREINER, D. L. Patient-reported quality of life and biopsychosocial health outcomes in pediatric epilepsy: an update for healthcare providers. **Epilepsy and Behavior**, v. 86, p. 19-24, 2018. DOI 10.1016/j.yebeh.2018.05.009.

ROSENBAUM, P. Family and quality of life: key elements in intervention in children with cerebral palsy. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 53, suppl. 4, pa. 68-70, 2011. DOI 10.1111/j.1469-8749.2011.04068.x.

ROSENBAUM, P.; PANETH, N.; LEVITON, A.; GOLDSTEIN, M.; BAZ, M.; DAMIANO, D.; DAN, B.; JACOBSSON, B. A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 109, p. 8-14, 2007.

ROSENBAUM, P.; STEWART, D. The World Health Organization International Classification of Functioning, Disability, and Health: a model to guide clinical thinking, practice and research in the field of cerebral palsy. **Seminars in Pediatric Neurology**, v. 11, n. 1, p. 5-10, 2004. DOI 10.1016/j.spen.2004.01.002.

SADEGHI, S.; FAYED, N.; RONEN, G. M. Patient-reported outcome measures in pediatric epilepsy: a content analysis using World Health Organization definitions. **Epilepsia**, v. 55, n. 9, p. 1431-1437, 2014. DOI 10.1111/epi.12740.

SADOWSKA, M.; HUJAR, B. S.; KOPYTA, I. Cerebral palsy: current opinions on definition, epidemiology, risk factors, classification and treatment options. **Neuropsychiatric Disease and Treatment**, v. 16, p. 1505-1518, 2020. DOI 10.2147/NDT.S235165.

SCAZUFCA, M. Versão brasileira da escala Burden Interview para avaliação de sobrecarga de cuidadores de pessoas com doenças mentais. **Revista Brasileira de Psiquiatria**, v. 24, n. 1, p. 12-17, 2002.

SCHERTZ, M.; VISEL, Y. K.; TAMIR, A.; GENIZI, J.; ROTH, D. Family quality of life among families with a child who has a severe neurodevelopmental disability: Impact of family and child socio-demographic factors. **Research in Developmental Disabilities**, v. 53-54, p. 95-106, 2016. DOI 10.1016/j.ridd.2015.11.028.

SELLERS, D.; MANDY, A.; PENNINGTON, L.; HANKINS, M.; MORRIS, C. Development and reliability of a system to classify the eating and drinking ability of people with cerebral palsy. **Developmental Medicine and Child Neurology**, v. 56, n. 3, p. 245-251, 2014. DOI 10.1111/dmcn.12352.

ABANOZ, E. S.; ÖZMEN, M.; ÇALISKAN M.; GOKÇAY, G.; AYDINLI, N. Ambulation, lesion level, and health-related quality of life in children with myelomeningocele. **Child's Nervous System**, v. 36, n. 3, p. 611-616, 2020. DOI 10.1007/s00381-019-04348-0.

SILVERIO, C. C.; SELLERS, D.; CURCIO, D.; GONÇALVES, M. I. R.. Eating and Drinking Ability Classification System – EDACS: cross-cultural adaptation of the Brazilian Portuguese. **Distúrbios da Comunicação**, v. 34, n. 3, e564-570, 2022. DOI 10.23925/2176-2724.2022v34i3e56470.

SIMPSON, T. S.; GRANDE, L. A.; KENNY, J. J.; WILSON, P. E.; PETERSON, R. L. Child, parent, and family adjustment for patients followed in a multidisciplinary spina bifida clinic. **Topics in Spinal Cord Injury Rehabilitation**, v. 28, n. 3, p. 41-58, 2022. DOI 10.46292/sci21-00074.

SOGBOSSI, E. S.; HOUEKPETODJI, D.; KPADONOU, T. G.; BLEYENHEUFT, Y. Mothers' perception of cerebral palsy in a low-income country of West Africa: a cross-sectional study. **Disability and Rehabilitation**, v. 44, n. 17, p. 4767-4774, 2022. DOI 10.1080/09638288.2021.1919765.

SONUNE, S. P.; GAUR, A. K.; SHENOY, A. Prevalence of depression and quality of life in primary caregiver of children with cerebral palsy. **Journal of Family Medicine and Primary Care**, v. 10, n. 11, p. 4205-4211, 2021. DOI 10.4103/jfmpc.jfmpc_70_21.

SOUZA, J. M.; MACHADO, F. R. C.; ANTUNES, P. P.; SANTOS, A. C.; LEVANDOWSKI, D. C.; OLIVEIRA JUNIOR, A. A. Qualidade de vida e sobrecarga de cuidadores de crianças com paralisia cerebral. **Revista Brasileira em Promoção da Saúde**, v. 31, n. 3, p. 1-10, 2018. Disponível em: <https://ojs.unifor.br/RBPS/article/view/7748>. Acesso em: 11 ago. 2022.

SPAULDING, B. R.; MORGAN, S. B. Spina bifida children and their parents: a population prone to family dysfunction? **Journal of Pediatric Psychology**, v. 11, n. 3, p. 359-374, 1986. DOI 10.1093/jpepsy/11.3.359.

STAUFFACHER, K.; DEHART, G. B. Crossing social contexts: Relational aggression between siblings and friends during early and middle childhood. **Journal of Applied Developmental Psychology**, v. 27, n. 3, p. 228-240, 2006. DOI 10.1016/j.appdev.2006.02.004.

TAYLOR, R. M.; GIBSON, F.; FRANCK, L. S. A concept analysis of health-related quality of life in young people with chronic illness. **Journal of Clinical Nursing**, v. 17, n. 14, p. 1823-1833, 2008. DOI 10.1111/j.1365-2702.2008.02379.x.

TSENG, M. H.; CHEN, K. L.; SHIEH, J. Y.; LU, L.; HUANG, C. Y.; SIMEONSSON, R. J. Child characteristics, caregiver characteristics, and environmental factors affecting the quality of life of caregivers of children with cerebral palsy. **Disability and Rehabilitation**, v. 38, n. 24, p. 2374-2382, 2016. DOI 10.3109/09638288.2015.1129451.

VADIVELAN, K.; SEKAR, P.; SRUTHI, S. S.; GOPICHANDRAN, V. Burden of caregivers of children with cerebral palsy: an intersectional analysis of gender, poverty, stigma, and public policy. **BMC Public Health**, v. 20, n. 1, p. 645, 2020. DOI 10.1186/s12889-020-08808-0.

VALENÇA, M. P.; MENEZES, T. A.; CALADO, A. A.; CAVALCANTI, G. A. Burden and quality of life among caregivers of children and adolescents with meningomyelocele: measuring the relationship to anxiety and depression. **Spinal Cord**, v. 50, n. 7, p. 553-557, 2012. DOI 10.1038/sc.2012.10.

VAN RIPER, M. The sibling experience of living with childhood chronic illness and disability. **Annual Review of Nursing Research**, v. 21, p. 279-302, 2003.

VANDERKERKEN, L.; HEYVAERT, M.; ONGHENA, P.; MAES, B. Quality of life in Flemish families with a child with an intellectual disability: a multilevel study on opinions of family members and the impact of family member and family characteristics. **Applied Research in Quality of Life**, v. 13, p. 779-802, 2018. DOI 10.1007/s11482-017-9558-z

VEER, T.; MEESTER, H.; POENARU, D; KOGEL, A; AUGENSTEIN, K.; BRANSFORD, R. Quality of life for families with spina bifida in Kenya. **Tropical Doctor**, v. 38, n. 3, p. 160-162, 2008. DOI 10.1258/td.2007.070053.

VITRIKAS, K.; DALTON, H.; BREISH, D. Cerebral palsy: an overview. **American Family Physician**, v. 101, n. 4, p. 213-220, 2020.

WAKIMIZU, R.; FUJIOKA, H.; NISHIGAKI, K.; MATSUZAWA, A. Quality of life and associated factors in siblings of children with severe motor and intellectual disabilities: A cross-sectional study. **Nursing and Health Sciences**, v. 22, n. 4, p. 977-987, 2020. DOI 10.1111/nhs.12755.

WIEGNER, S.; DONDERS, J. (2000). Predictors of parental distress after congenital disabilities. **Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics**, v. 21, n. 4, p. 271–277, 2000. DOI 10.1097/00004703-200008000- 00003.

WIJESINGHE, C. J.; CUNNINGHAM, N.; FONSEKA, P.; HEWAGE, C. G.; ØSTBYE, T. Factors associated with caregiver burden among caregivers of children with cerebral palsy in Sri Lanka. **Asia-Pacific Journal of Public Health**, v. 27, n. 1, p. 85-95, 2015 DOI 10.1177/1010539514548756.

WILKINS, K. L.; WOODGATE, R. L. A review of qualitative research on the childhood cancer experience from the perspective of siblings: a need to give them a voice. **Journal of Pediatric Oncology Nursing**, v. 22, n. 6, p. 305-319, 2005. DOI 10.1177/1043454205278035.

WORLD HEALTH ORGANIZATION. **International Classification of Functioning, Disability and Health: ICF**. Geneva: WHO, 2001.

WORLD HEALTH ORGANIZATION. **International Classification of Functioning, Disability, and Health: children and youth version: ICF-CY**. Geneva: WHO, 2007.

WORLD HEALTH ORGANIZATION. **WHOQOL user manual**. Geneva: WHO, 1998. Disponível em: https://www.who.int/mental_health/evidence/who_qol_user_manual_98.pdf. Acesso em: 10 fev. 2021.

WORLD HEALTH ORGANIZATION. **World atlas of birth defects**. Geneva: WHO, 2003. Disponível em: <https://bit.ly/30XNLUlN>. Acesso em: 13 fev. 2020.

YIGMAN, F.; YIGMAN, Z. A.; AKYUZ, E. U. Investigation of the relationship between disease severity, caregiver burden and emotional expression in caregivers of children with cerebral palsy. **Irish Journal of Medical Science**, v. 189, n. 4, p. 1413-1419, 2020. DOI 10.1007/s11845-020-02214-6.

YING, K.; ROSTENBERGHE, H. V.; KUAN, G.; YUSOFF, M. H. A. M.; ALI, S. H.; YAACOB, N. S. Health-related quality of life and family functioning of primary caregivers of children with cerebral palsy in Malaysia. **International Journal of Environmental Research and Public Health**, v. 18, n. 5, p. 2351, 2021. DOI 10.3390/ijerph18052351.

ZANON, M. A.; BATISTA, N. A. Quality of life and level of anxiety and depression in caregivers of children with cerebral palsy. **Revista Paulista de Pediatria**, v. 30, n. 3, p. 392-396, 2012.

ZUNA, N.; SUMMERS, J. A.; TURNBULL, A. P.; HU, X.; XU, S. Theorizing about family quality of live. *In*: KOBER, R. (ed.). **Enhancing the quality of life of people with intellectual disabilities**: from theory to practice. London: Springer, 2010. p. 241-278.

APÊNDICE A – Termo de consentimento livre e esclarecido**TERMO DE CONSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO (TCLE)**

Título do Projeto: QUALIDADE DE VIDA DAS FAMÍLIAS E DOS IRMÃOS DE CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM PARALISIA CEREBRAL E COM

MIELOMENINGOCELE

Prezado Sr(a),

O Sr(a) ou o(a) menor sobre a sua responsabilidade está sendo convidado(a) a participar de uma pesquisa que estudará a qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele acompanhados no Centro Internacional SARA H de Neuroreabilitação e Neurociências.

O Sr(a) ou o(a) menor sobre a sua responsabilidade foi selecionado(a) porque a criança/adolescente sobre a sua responsabilidade apresenta o diagnóstico de paralisia cerebral ou de mielomeningocele certificado por pediatras da Instituição ou porque é uma criança/adolescente saudável que é irmão ou irmã de um(a) outro(a) criança/adolescente saudável.

A sua participação ou a participação do(a) menor sobre a sua responsabilidade é voluntária e consiste em responder a alguns questionários referentes qualidade de vida e sobrecarga dos cuidadores e em permitir o acesso e uso das informações registradas em prontuário eletrônico (no caso das crianças/adolescentes com diagnóstico de paralisia cerebral ou de mielomeningocele) para fins da pesquisa. Não será necessária nenhuma alteração na rotina dos atendimentos ao longo do acompanhamento ou exame específico para fins de pesquisa. O Sr(a) ou o(a) menor sobre a sua responsabilidade não terá nenhum gasto e também não receberá nenhum pagamento por participar desse estudo. Poderá ocorrer um eventual desconforto causado pelo maior tempo de permanência no ambiente hospitalar para a coleta dos dados.

As informações obtidas nesse estudo serão confidenciais, sendo assegurado o sigilo sobre a sua participação ou a participação do(a) menor sobre a sua responsabilidade, quando da apresentação dos resultados em publicação científica ou educativa, uma vez que os resultados serão sempre apresentados como retrato de um grupo e não de uma pessoa. O uso destas

informações é considerado seguro, mas é possível ocorrer riscos de abertura da confidencialidade e quebra de sigilo de dados. O(a) menor sobre a sua responsabilidade poderá se recusar a participar dessa pesquisa a qualquer momento, bastando para isso informar o pesquisador responsável, não havendo nenhum prejuízo em seu tratamento se esta for a sua decisão. É garantido o direito a indenização diante de eventuais danos decorrentes da pesquisa.

Uma vez os irmãos saudáveis serão indagados sobre a sua qualidade de vida, com a hipótese de que esta seria afetada pela atenção requerida pelo irmão com deficiência, há que se considerar a possibilidade de um eventual impacto psicológico nessa criança, porém, caso este impacto já estiver ocorrendo, esta seria uma oportunidade para a criança expressar seus sentimentos e para receber cuidados pertinentes.

Os resultados dessa pesquisa servirão para aumentar o conhecimento sobre a qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele. O benefício principal da participação do menor sobre a sua responsabilidade é possibilitar que no futuro, com os resultados alcançados com esta pesquisa, os pacientes, suas famílias e seus irmãos sejam beneficiados.

O Sr(a) receberá uma via deste termo onde consta o telefone e o e-mail do pesquisador responsável, podendo tirar dúvidas sobre o projeto e a participação do menor sobre a sua responsabilidade, agora ou a qualquer momento.

Pesquisador responsável:

Nome: Bruno Leonardo Scofano Dias e-mail:
brunoscofano91@gmail.com Telefone: (21)987081023.

Este estudo foi aprovado pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Associação das Pioneiras Sociais, que poderá ser contatado em caso de questões éticas, pelo telefone: (61) 3319-1494 ou email: comiteeticapesquisa@sarah.br.

Nome do participante

Assinatura do representante legal

Data

Nome e Assinatura do pesquisador

Data

APÊNDICE B – Termo de assentimento livre e esclarecido**TERMO DE ASSENTIMENTO LIVRE E ESCLARECIDO (TALE)**

Para crianças e adolescentes

Você está sendo convidado para participar da pesquisa QUALIDADE DE VIDA DAS FAMÍLIAS E DOS IRMÃOS DE CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM PARALISIA CEREBRAL E COM MIELOMENINGOCELE.

Esta pesquisa estudará a qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele acompanhados no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências.

As crianças e adolescentes que participarão dessa pesquisa têm de 8 a 18 anos de idade.

Você não precisa participar da pesquisa se não quiser, é um direito seu, não terá nenhum problema se desistir.

A pesquisa será feita no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências, onde serão analisadas as respostas aos questionários que você preencheu. O uso destas informações é considerado seguro, mas é possível ocorrer riscos de abertura da confidencialidade e quebra de sigilo de seus dados. As informações obtidas nesse estudo serão confidenciais, sendo assegurado o sigilo sobre a sua participação. Poderá ocorrer um eventual desconforto causado pelo maior tempo de permanência no ambiente hospitalar para a coleta dos dados. Caso aconteça algo errado, você pode nos procurar pelo telefone (21) 987081023 do pesquisador Bruno Leonardo Scofano Dias. Mas há coisas boas que podem acontecer como aumentar sobre a qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele. O benefício principal da sua participação é possibilitar que no futuro, com os resultados alcançados com esta pesquisa, pacientes, suas famílias e seus irmãos sejam beneficiados.

Ninguém saberá que você está participando da pesquisa, não falaremos a outras pessoas, nem daremos a estranhos as informações que você nos der. Os resultados da pesquisa serão publicados, mas sem identificar as crianças que participaram da pesquisa.

Quando terminarmos a pesquisa os resultados serão publicados em uma revista científica. Se você tiver alguma dúvida, você pode me perguntar ou a pesquisadora Fernanda Marinho de Lima. Eu escrevi os telefones na parte de baixo desse texto.

Entendi as coisas ruins e as coisas boas que podem acontecer. Entendi que tenho a liberdade de escolher em participar ou não da pesquisa. Se escolher em participar tenho a liberdade de, a qualquer momento desistir e sair da pesquisa, sem que meu tratamento seja prejudicado. Os pesquisadores tiraram minhas dúvidas e conversaram com os meus responsáveis.

Pesquisador responsável:

Nome: Bruno Leonardo Scofano Dias e-mail:
brunoscofano91@gmail.com Telefone: (21) 987081023.

Pesquisadora:

Nome: Fernanda Marinho de Lima e-mail:
nanda_ml@yahoo.com.br Telefone: (21) 986673922.

Recebi uma via deste termo de assentimento e li e entendi o conteúdo.

Rio de Janeiro, ____ de _____ de _____.

Assinatura do menor

Assinatura do(a) pesquisador(a)

APÊNDICE C - Ficha de coleta de dados qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com paralisia cerebral

Número_____

1 – Idade da criança/adolescente

Em anos _____

☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

2 – Gênero da criança/adolescente

☐ Masculino ☐ Feminino

3 – Composição familiar

☐ 2 responsáveis (mãe + pai; mãe + mãe; pai + pai)

☐ 2 responsáveis (avô + avó)

☐ 1 responsável (mãe; pai)

☐ 1 responsável (avô; avó)

4 – Classe econômica

☐ A ☐ B ☐ C ☐ D/E

5 – GMFCS

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV ☐ V

6 – EDACS

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV ☐ V

7 – Comorbidades neurodesenvolvimento

☐ Sem AGD/DI ☐ AGD ☐ DI

8 – Epilepsia☐ Presente ☐ Ausente9 – BI

Domínios

IPC Total _____ Média _____

RI Total _____ Média _____

EC Total _____ Média _____

PA Total _____ Média _____

Total escala _____

10 - FQoLS

Domínios

Interação familiar Total _____ Média _____

Cuidados dos pais com os filhos Total _____ Média _____

Bem-estar emocional Total _____ Média _____

Bem-estar físico/material Total _____ Média _____

Apoio ao deficiente Total _____ Média _____

Total escala _____

APÊNDICE D - Ficha de coleta de dados qualidade de vida dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral

Número_____

1 – Idade da criança/adolescente

Em anos _____

☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

2 - Idade da criança/adolescente com PC

Em anos _____

☐ 2-5 anos ☐ 6-9 anos ☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

3 – Gênero da criança/adolescente

☐ Masculino ☐ Feminino

3 – Gênero da criança/adolescente com PC

☐ Masculino ☐ Feminino

4 – Composição familiar

☐ 2 responsáveis (mãe + pai; mãe + mãe; pai + pai)

☐ 2 responsáveis (avô + avó)

☐ 1 responsável (mãe; pai)

☐ 1 responsável (avô; avó)

5 – Classe econômica

☐ A ☐ B ☐ C ☐ D/E

6 – GMFCS

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV ☐ V

7 – EDACS

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV ☐ V

8 – Comorbidades neurodesenvolvimento

☐ Sem AGD/DI ☐ AGD ☐ DI

9 – Epilepsia

☐ Presente ☐ Ausente

10 – BI

Domínios

IPC Total _____ Média _____

RI Total _____ Média _____

EC Total _____ Média _____

PA Total _____ Média _____

Total escala _____

11 - FQoLS

Domínios

Interação familiar Total _____ Média _____

Cuidados dos pais com os filhos Total _____ Média _____

Bem-estar emocional Total _____ Média _____

Bem-estar físico/material Total _____ Média _____

Apoio ao deficiente Total _____ Média _____

Total escala _____

12 - KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version

Domínios

Domínio 1 Total _____ Média _____

Domínio 2 Total _____ Média _____

Domínio 3 Total _____ Média _____

Domínio 4 Total _____ Média _____

Domínio 5 Total _____ Média _____

Total escala _____

13 - KIDSCREEN-27 Parent Version

Domínios

Domínio 1 Total _____ Média _____

Domínio 2 Total _____ Média _____

Domínio 3 Total _____ Média _____

Domínio 4 Total _____ Média _____

Domínio 5 Total _____ Média _____

Total escala _____

APÊNDICE E - Ficha de coleta de dados qualidade de vida das famílias de crianças/adolescentes com mielomeningocele

Número_____

1 - Idade da criança/adolescente

Em anos _____

☐ 2-5 anos ☐ 6-9 anos ☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

2 – Gênero da criança/adolescente

☐ Masculino ☐ Feminino

3 – Composição familiar

☐ 2 responsáveis (mãe + pai; mãe + mãe; pai + pai)

☐ 2 responsáveis (avô + avó)

☐ 1 responsável (mãe; pai)

☐ 1 responsável (avô; avó)

4 – Classe econômica

☐ A ☐ B ☐ C ☐ D/E

5 – Critérios de Hoffer

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV

6 – GIU

☐ GIU-CCVI ☐ GIU-SCVI

7 – GIF

☐ IFP ☐ IFA

8 – BI

Domínios

IPC Total _____ Média _____

RI Total _____ Média _____

EC Total _____ Média _____

PA Total _____ Média _____

Total escala _____

9 - FQoLS

Domínios

Interação familiar Total _____ Média _____

Cuidados dos pais com os filhos Total _____ Média _____

Bem-estar emocional Total _____ Média _____

Bem-estar físico/material Total _____ Média _____

Apoio ao deficiente Total _____ Média _____

Total escala _____

APÊNDICE F - Ficha de coleta de dados qualidade de vida dos irmãos de crianças/adolescentes com mielomeningocele

Número_____

1 – Idade da criança/adolescente

Em anos _____

☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

2 - Idade da criança/adolescente com PC

Em anos _____

☐ 2-5 anos ☐ 6-9 anos ☐ 10-12 anos ☐ 13-15 anos

3 – Gênero da criança/adolescente

☐ Masculino ☐ Feminino

3 – Gênero da criança/adolescente com PC

☐ Masculino ☐ Feminino

4 – Composição familiar

☐ 2 responsáveis (mãe + pai; mãe + mãe; pai + pai)

☐ 2 responsáveis (avô + avó)

☐ 1 responsável (mãe; pai)

☐ 1 responsável (avô; avó)

5 – Classe econômica

☐ A ☐ B ☐ C ☐ D/E

6 – Critérios de Hoffer

☐ I ☐ II ☐ III ☐ IV

7 – GIU

☐ GIU-CCVI ☐ GIU-SCVI

8 – GIF

☐ IFP ☐ IFA

9 – BI

Domínios

IPC Total _____ Média _____

RI Total _____ Média _____

EC Total _____ Média _____

PA Total _____ Média _____

Total escala _____

10 - FQoLS

Domínios

Interação familiar Total _____ Média _____

Cuidados dos pais com os filhos Total _____ Média _____

Bem-estar emocional Total _____ Média _____

Bem-estar físico/material Total _____ Média _____

Apoio ao deficiente Total _____ Média _____

Total escala _____

11 - KIDSCREEN-27

Domínios

Domínio 1 Total _____ Média _____

Domínio 2 Total _____ Média _____

Domínio 3 Total _____ Média _____

Domínio 4 Total _____ Média _____

Domínio 5 Total _____ Média _____

Total escala _____

12 - KIDSCREEN-27 Parent Version

Domínios

Domínio 1 Total _____ Média _____

Domínio 2 Total _____ Média _____

Domínio 3 Total _____ Média _____

Domínio 4 Total _____ Média _____

Domínio 5 Total _____ Média _____

Total escala _____

APÊNDICE G – Artigo “Quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy treated at a reference neurorehabilitation center in Brazil” publicado online (no prelo para publicação impressa) no periódico *Jornal de Pediatria*

ARTICLE IN PRESS

JID: JPED

Jornal de Pediatria xxx(2024)xxx: 1–8

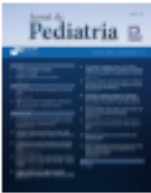
Journal of Pediatrics May 1, 2024;6:26



Jornal de

Pediatria

www.jpmed.com.br



ORIGINAL ARTICLE

Quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy treated at a reference neurorehabilitation center in Brazil☆

Bruno Leonardo Scofano Dias ^{a,b,*}

Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues ^{b,c}

José Luiz Muniz Bandeira Duarte ^{b,c}

^a Rede SARAÍ de Hospitais de Reabilitação, Rio de Janeiro, RJ, Brazil

^b Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ), Faculdade de Ciências Médicas, Programa de Pós-Graduação em Ciências Médicas, Rio de Janeiro, RJ, Brazil

^c Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ), Faculdade de Ciências Médicas, Departamento de Pediatria, Rio de Janeiro, RJ, Brazil

Received 3 October 2023; accepted 25 March 2024

Available online xxx

KEYWORDS

Quality of life;
Family;
Siblings;
Cerebral palsy

Abstract

Objectives: To investigate the associations between caregivers' burden, family quality of life (QoL), and siblings' QoL in Brazilian families of children with cerebral palsy, and to analyze siblings' QoL using as a parameter the QoL of typically developed Brazilian children.

Methods: It was a cross-sectional study. The 212 families, 212 caregivers and 131 siblings completed the Family Quality of Life Scale, Burden Interview, and KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version and Parents Version questionnaires at a neurorehabilitation center in southeast Brazil. Univariable and multivariable models were used.

Results: Family QoL significantly worsened as caregivers' burden increased (95 % CI -0.66 to -0.38). Caregivers' burden was significantly lower with increasing family QoL scores (95 % CI -0.52 to -0.30). Self-reported siblings' QoL was significantly worse than that of their typically developed peers (95 % CI -7.6 to -3.6). Self-reported siblings' QoL was significantly lower as siblings' age (95 % CI -2.52 to -0.59) and caregivers' burden (95 % CI -0.35 to -0.05) increased. Parent-reported siblings' QoL was significantly lower with increasing caregivers' burden (95 % CI -0.45 to -0.16) and higher as family QoL increased (95 % CI 0.09 to 0.37).

Conclusions: The cross-sectional nature of these data precludes any statement of causality. Family QoL worsened with higher caregivers' burden levels. Lower caregivers' burden scores were associated with a higher family QoL. Siblings' QoL was impaired as compared to typically developed peers, worse among older siblings, and as caregivers' burden increased and better with higher family QoL levels. Future multicenter studies may validate the generalizability of the present findings.

☆ Institution: Universidade do Estado do Rio de Janeiro.

* Corresponding author.

E-mail: 9823@sarah.br (B.L.S. Dias).

<https://doi.org/10.1016/j.jpmed.2024.03.010>

0021-7557/© 2024 Published by Elsevier Editora Ltda. on behalf of Sociedade Brasileira de Pediatria. This is an open access article under the CC BY license (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Please cite this article in press as: B.L.S. Dias, M.C.C. de Rodrigues and J.L.M.B. Duarte, Quality of life of families and siblings of children with cerebral palsy treated at a reference neurorehabilitation center in Brazil, *Jornal de Pediatria* (2024), <https://doi.org/10.1016/j.jpmed.2024.03.010>

ARTICLE IN PRESS

JID: JPEC

[inSPIRE May 1, 2024, 6:26]

B.L.S. Dias, M.C.C. de Rodrigues and J.L.M.B. Duarte

© 2024 Published by Elsevier Editora Ltda. on behalf of Sociedade Brasileira de Pediatria. This is an open access article under the CC BY license (<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>).

Introduction

Cerebral palsy (CP) is a major cause of childhood disability.¹ Besides physical disability, clinical, neurological, orthopedic, sensory, mental health, and neurodevelopmental disorders may coexist and require continuous care. Consequently, there is a risk of burden on the main caregiver and an impact on the family and siblings' quality of life (QoL). The QoL construct is multidimensional, covering the subjective appraisal of personal feelings, social relationships, local environment, societal values, and material conditions.² Family QoL is a dynamic sense of well-being, collectively defined, and subjectively informed by its members.³ Caregivers' burden represents the objective and subjective impairments associated with the care provided.⁴

Caregivers' burden and their QoL in CP are well known and have been associated with patients' gross motor impairments,⁵ intellectual disability, and emotional problems;⁶ caregivers' mental^{6,7} and physical health;⁷ family coping patterns,⁸ income and composition;^{6,7} social support⁷ and school environment.⁸ Some studies correlated family functioning reported by caregivers (not specifically family QoL) with patients' functional independence,⁸ and age;⁹ family composition, and income; parents' education, and social integration.^{8,9} However, the family QoL concept involves the entire family system. This construct must be defined and informed by all family members, not just parents/caregivers. Although there is still a gap in the literature regarding its knowledge, some studies effectively studied family QoL in CP and identified low family education level,¹⁰ low environmental support¹¹ and patient's severe physical and communication impairments^{10,12} as impact factors.

Caregivers' burden may result in a reduction in the remaining attention time for other family members. Consequently, siblings may feel neglected and experience negative emotions.¹³ Only a few studies analyzed the life dimensions of siblings of children with CP such as psychological impacts,^{14,15} psychosocial issues,^{16,17} and QoL (poorer than that of controls in all three studies).^{13,18,19} However, none of these studies specifically and exclusively evaluated siblings' QoL in CP and its correlations with influencing factors.

The authors aimed to study: (1) the associations between family QoL and caregivers' burden in families of Brazilian children and adolescents with CP and its correlations with sociodemographic, functional, intellectual and clinical variables; (2) the QoL of siblings of Brazilian children and adolescents with CP using as a parameter the QoL of typically developed Brazilian children and adolescents and its correlations with sociodemographic, functional, intellectual and clinical variables, family QoL and caregivers' burden. The hypotheses were: (1) family QoL and caregivers' burden levels would be inversely associated, and worse sociodemographic, functional, intellectual, and clinical indicators would predict lower levels of family QoL and higher levels of caregivers' burden; (2) siblings' QoL levels would be lower

than that of typically developed Brazilian children and adolescents, and worse sociodemographic, functional, intellectual, clinical, family QoL and caregivers' burden indicators would predict poorer levels of siblings' QoL.

Method

The study used a cross-sectional design.

As the authors do not have reliable descriptions in the literature about the prevalence of CP in Brazil and in the city of Rio de Janeiro, it was not possible to carry out the sample size calculation and we chose to use a convenience sample. Participants were recruited from a sample of children and adolescents with CP consecutively treated at a neurorehabilitation center in southeast Brazil. The following inclusion criteria were used: families of children and adolescents with CP aged between 2 and 16 years with typically developed siblings aged between 10 and 15 years. The age range of the patients was chosen so that the authors could clearly define the functional classification of each of them. The age range of the siblings was chosen so that it would be exactly matched with the age range of the sample of typically developed Brazilian children and adolescents with whom their QoL would be compared. Families and siblings would be excluded if they did not return completed instruments for measuring family QoL, caregiver burden, siblings' QoL, and family economic classification. The study was approved by the Research Ethics Committee of the SARAH Network of Rehabilitation Hospitals (Certificate of Submission for Ethics Assessment 5038/121.1.0000.0022). Data was collected between November 2021 and November 2022.

The authors followed a pre-established structured protocol. Patients' legal guardians and siblings were approached by the researcher. The objectives of the study were explained. Legal guardians and siblings completed informed consent for the research and publication of results. Families, caregivers and siblings completed the instruments for measuring family QoL, caregiver burden, siblings' QoL, and family economic classification in their homes and returned them to the researchers at the institution. Other demographic, functional, intellectual and clinical data on patients, and sociodemographic data on families and on siblings were collected from the patients' electronic medical records. Two hundred and twelve families and 131 siblings were included. All families and siblings returned completed questionnaires.

Measures

Family quality of life

The Family Quality of Life Scale (FQoLS) questionnaire was used to analyze family QoL. This instrument was designed to evaluate QoL in families with children with disabilities. Responses vary from 1 to 5 in each of the 25 items. The total score is obtained through the sum of all items.²⁰ Satisfaction

Levels are classified as very dissatisfied (25 to 44 points), dissatisfied (45 to 64 points), moderately satisfied (65 to 84 points), satisfied (85 to 104 points), and very satisfied (105 to 125 points). FQoL was defined as follows: low family QoL (very dissatisfied, dissatisfied, moderately satisfied) / high family QoL (satisfied and very satisfied).

Caregivers' burden

Caregivers' burden was assessed using the Burden Interview (BI). This instrument assesses caregivers' burden associated with functional and behavioral aspects of patients with disabilities. Responses vary from zero to 4 in each of the 22 items. The total score is obtained through the sum of all items. Burden levels are classified as absent (≤ 21 points), mild to moderate (22 to 40 points), moderate to severe (41 to 60 points), and severe (≥ 61 points).²⁵ Caregivers' burden was defined as follows: low caregivers' burden (absent and mild to moderate) / high caregivers' burden (moderate to severe and severe).

Siblings' quality of life

Siblings' QoL was evaluated using the self-report and parent-proxy versions of the generic KIDSCREEN measure. KIDSCREEN (versions with 52, 27 and 10 items) is designed for 8 to 18 years olds. The authors used the KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version (KIDSCREEN-27 CAV) and Parent Version (KIDSCREEN-27 PAV). These versions comprise 27 items distributed in five domains: physical well-being; psychological well-being; autonomy and relationship with parents; social support and peers; and school environment. Scores are coded from 1 to 5. Raw scores are obtained by summing items in each QoL domain. Rasch person parameters are then allocated to each score and transformed to a zero to 100 scale.^{22,23,24}

Quality of life of typically developed Brazilian children and adolescents

The authors used the data described by Farias et al. (2017)²⁵ as a QoL parameter for typically developed Brazilian children and adolescents. In this study, the authors used a sample of individuals aged 10 to 15 years, for reproducibility, internal consistency and construct validity of the KIDSCREEN-27 in Brazil.

Family economic classification and educational level

Family economic classification and educational level were assessed using the Brazil Criteria. This criterion is a scoring system for housing conditions, consumer goods, access to public services and family main educational level of Brazilian families. The sum of the scores of all items classifies families into descending economic classes A, B, C, D and E.²⁶ Family economic classification and educational level were defined respectively as follows: high-income family (economy classes A and B) / low-income family (economy classes C and D/E); low educational level (illiterate to incomplete high school) / high educational level (high school to complete undergraduate education).

Patients' functional gross motor and swallowing capacities
Patients' functional gross motor capacities were evaluated using the Gross Motor Function Classification System (GMFCS). The goal of the GMFCS is to classify the child's

gross motor function through five increasing severity motor levels (I to V), characterizing the child's motor performance.²⁷

The swallowing capacities were analyzed using the Eating and Drinking Ability Classification System (EDACS). EDACS is an instrument created to measure the safety and efficiency of swallowing conditions specifically in children with CP. Its numerical classification system comprises a scale from I to V, with the higher the score, the worse the swallowing condition.²⁸

Patients' functional gross motor and swallowing capacities were respectively defined as follows: low motor impairment (GMFCS I, II, III) / high motor impairment (GMFCS IV and V); low swallowing impairment (EDACS I, II, III) / high swallowing impairment (EDACS IV and V).

Patients' intellectual impairment and epilepsy

Intellectual impairment was defined as the presence of global developmental delay or intellectual disability analyzed by the Vineland Adaptive Behavior Scales (VABS). VABS is the most validated instrument for adaptive functioning following brain pathology in children in low- and middle-income countries.²⁹

Epilepsy was classified as absent or present using the definition of the International League Against Epilepsy as a disease of the brain defined by any of the following conditions: at least two unprovoked (or reflex) seizures occurring more than 24 h apart; one unprovoked (or reflex) seizure and a probability of further seizures similar to the general recurrence risk (at least 60 %) after two unprovoked seizures, occurring over the next 10 years; diagnosis of an epilepsy syndrome.³⁰

FQoLS,²⁰ BI,²¹ KIDSCREEN-27,²⁵ GMFCS,²⁷ EDACS²⁸ and VABS²⁹ are translated, validated and adapted for the Portuguese language spoken in Brazil and for Brazilian culture.

Statistical analysis

Data were summarized using mean (standard deviation [SD]) or median (interquartile range [IQR]) for continuous variables and frequency (percent) for categorical variables. There were no missing data. Variable distributions were visualized and quality-checked with bar and violin plots.

Comparisons of domains and total scores on KIDSCREEN-27 CAV of siblings and typically developed Brazilian children and adolescents, and comparisons of domains and total scores on KIDSCREEN-27 CAV and KIDSCREEN-27 PAV of siblings were performed using t-test (parametric) and Wilcoxon test (non-parametric) respectively for samples with and without normal distribution. Effect sizes and 95 % confidence intervals (CI) of each of these comparisons were calculated.

Multivariable models were constructed for FQoLS, BI, KIDSCREEN-27 CAV, and KIDSCREEN-27 PAV total scores. The authors checked for linearity, normality, collinearity, autocorrelation and homoscedasticity. Estimates were presented with 95 % CI. Two-sided p-values less than 0.05 were considered significant. All statistical analyses were performed in Jamovi 2.3.16 (Jamovi, 2022). STROBE reporting guidelines were followed.

ARTICLE IN PRESS

JID: JFCD

[inSPP May 1, 2024; 6:20]

B.L.S. Dias, M.C.C. de Rodrigues and J.L.M.B. Duarte

Results

Sample characteristics

Families and caregivers

There were 212 families, mostly with two legal guardians, low income, high educational level, and high family QoL (77.4 %). The median (IQR) of the FQoLS total score was 96.0 (86.0–107.0). The 212 caregivers were female, with a predominantly low caregiver burden (78.7 %). The median (IQR) of the BI total score was 30.0 (22.0–38.2) (Table 1).

Patients, siblings and typically developed Brazilian children and adolescents

There were 212 patients (mean age 6 years 10 months, SD 3 years 6 months; median age 6 years, IQR 4 years–10 years; 93 aged 2 to 5 years; 120 males), mostly with intellectual impact, low motor and swallowing impairments and epilepsy. The authors assessed 131 siblings (mean age 12 years 6 months, SD 1 year 8 months; median age 13 years, IQR 11 years–14 years; 66 aged 13 to 15 years; 69 females). These characteristics are summarized in Table 1.

The sample of typically developed Brazilian children and adolescents comprised 1321 individuals (752 aged 10 to 12 years; 709 females), mostly from low-income families.

Univariable models

Self-reported quality of life of siblings and typically developed Brazilian children and adolescents

Siblings' self-reported QoL (KIDSCREEN-27 CAV domains and total mean scores) were significantly lower than that of typically developed Brazilian children and adolescents (KIDSCREEN-27 CAV domains and total mean scores), as follows: physical well-being ($p < .001$; 95 % CI –9.1 to –3.1; small effect size), psychological well-being ($p < .001$; 95 % CI –10.0 to –4.3; medium effect size), autonomy and relationship with parents ($p = .006$; 95 % CI –5.6 to –1.3; small effect size), social support and peers ($p = .04$; 95 % CI –6.9 to –1.9; small effect size), school environment ($p < .001$; 95 % CI –10.5 to –3.0; small effect size) and total score ($p < .001$; 95 % CI –7.6 to –3.6; medium effect size) (Table 2).

Self-reported and parent-reported quality of life of siblings

There were no significant differences between self- and parent-reported siblings' QoL (respectively KIDSCREEN-27 CAV and KIDSCREEN-27 PAV domains and total median scores), except for the social support and peers domain, in which siblings' perception was significantly more positive ($p = .002$; 95 % CI 5.0 to 15.0) (Fig. 1, supplementary material).

Multivariable models

Family quality of life and caregivers' burden multivariable models

Family QoL (FQoLS total scores) was significantly lower as caregivers' burden (BI total scores) increased (95 % CI –0.66 to –0.38) and significantly higher in families with low educational levels (95 % CI 0.38 to 8.16).

Caregivers' burden on BI total scores was significantly lower with increasing levels of family QoL (FQoLS total scores) (95 % CI –0.52 to –0.30) (Table 3).

Table 1 Characteristics of families, caregivers, patients and siblings.

Families N(%)	212 (100)
Two legal guardians	166 (78.3)
One legal guardian	46 (21.7)
Low-income	167 (78.7)
High-income	45 (21.3)
Low educational level	77 (36.3)
High educational level	135 (63.7)
Very dissatisfied with family QoL	1 (0.5)
Dissatisfied with family QoL	2 (0.9)
Moderately satisfied with family QoL	45 (21.2)
Satisfied with family QoL	100 (47.2)
Very satisfied with family QoL	64 (30.2)
Family Quality of Life Scale total score Median (IQR)	96.0 (86.0–107.0)
Caregivers' burden N (%)	212 (100)
Absent burden	45 (21.2)
Mild to moderate burden	122 (57.5)
Moderate to severe burden	38 (17.9)
Severe burden	7 (3.3)
Burden Interview total score Median (IQR)	30.0 (22.0–38.2)
Patients (N)	212
Age N (%)	
2–5 years	93 (43.9)
6–9 years	74 (34.9)
10–12 years	28 (13.2)
13–16 years	17 (8.0)
Age (years) Median (IQR)	6 (4–10)
Sex N (%)	
Male	120 (56.6)
Female	92 (43.4)
Functional characteristics N (%)	
Low motor impairment	109 (51.4)
High motor impairment	103 (48.6)
Low swallowing impairment	182 (85.9)
High swallowing impairment	30 (14.1)
Intellectual impairment N (%)	
Present global developmental delay or intellectual disability	169 (79.7)
Absent global developmental delay or intellectual disability	43 (20.3)
Epilepsy N (%)	
Present epilepsy	108 (50.9)
Absent epilepsy	104 (49.1)
Siblings (N)	131
Age N (%)	
10–12 years	65 (49.6)
13–15 years	66 (50.4)
Age (years) Median (IQR)	13 (11–14)
Sex N (%)	
Male	62 (47.3)
Female	69 (52.7)

IQR, interquartile range; N, number; %, percentage.

Siblings' multivariable models

Self-reported siblings' QoL (KIDSCREEN-27 CAV total scores) was significantly lower as siblings' age (95 % CI –2.52 to –0.99) and caregivers' burden (BI total scores) (95 % CI –0.35 to –0.05) increased, and in families with two legal guardians (95 % CI –9.49 to –0.29).

Parent-reported siblings' QoL (KIDSCREEN-27 PAV total scores) was significantly lower with increasing levels of caregivers' burden (BI total scores) (95 % CI –0.45 to –0.96) and

Table 2. Comparison of KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version mean scores between siblings and typically developed Brazilian children and adolescents.

	KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version					P	95% CI		Effect size
	Siblings	TDSCA			Inferior		Superior		
		N = 131	Mean (SD)	Mean (SD)					
Physical well-being		70.6 (16.3)	77.7 (14.1)		<0.001	-9.1	-3.1	-0.389	
Psychological well-being		78.5 (13.9)	85.7 (12.1)		<0.001	-10.0	-4.3	-0.661	
Autonomy and relationship with parents		72.3 (14.1)	77.0 (15.8)		0.006	-5.6	-1.3	-0.274	
Social support and peers		76.7 (17.9)	81.9 (16.5)		0.04	-6.9	-1.9	-0.207	
School environment		78.0 (16.2)	85.5 (14.5)		<0.001	-10.5	-3.0	-0.482	
Total score		75.2 (10.9)	81.3 (10.5)		<0.001	-7.6	-3.6	-0.550	

Bold type indicates statistical significance.

CI, confidence interval; N, number; TDCA, typically developed Brazilian children and adolescents.

significantly higher as family QoL (FQoL total scores) increased (95% CI 0.09 to 0.37) (Table 4).

Discussion

To the best of our knowledge, the present study is the first to specifically analyze the associations between family QoL, caregivers' burden, and siblings' QoL in families of children and adolescents with CP. Remarkably, and in disagreement with our hypotheses, patients' functional, intellectual and clinical variables were not significantly correlated with family QoL, caregivers' burden the self- and parent-reported siblings' QoL. In accordance with the present hypotheses, family QoL and caregivers' burden were important significant influencing factors for each other and siblings had significantly worse QoL than that of typically developed Brazilian children and adolescents. Family QoL was significantly worse in those with higher caregivers' burdens. Caregivers' burden was significantly lower as patients' age and family QoL increased. Self-reported siblings' QoL was significantly lower with increasing siblings' age and caregivers' burden, and parent-reported siblings' QoL was lower and higher respectively as caregivers' burden and family QoL increased.

In the present sample, most caregivers expressed a low burden, and families declared mostly a high family QoL. In contradiction, Sogbassi et al. (2021) found CP families with high impacts on family QoL in Benin¹⁰. Other studies did not evidence significant family QoL differences between CP families and those with typically developed controls in Croatia¹¹ and families with children with different developmental diagnoses in Israel.¹² These differences and similarities could possibly be explained by socioeconomic differences between high (Croatia and Israel) / upper middle-income (Brazil) and low-income (Benin) countries.

The authors found family QoL significantly higher and lower respectively in families with low educational levels and with increasing caregivers' burden scores. Probably a low educational level generated lower expectations with family QoL, and a high caregivers' burden reduced their time and attention for the family. A study performed in Bosnia and Herzegovina also observed significantly better family QoL in families of children with CP with low educational levels.⁵ Patients' functional, intellectual and clinical variables were not significantly correlated with family QoL in the sample. Once again, Sogbassi et al. (2021) found contrary findings, with family QoL negatively correlated with increasing GMFCS levels.¹⁰ The present results showed caregivers' burden was significantly lower as family QoL increased, and not significantly associated with patients' functional, intellectual and clinical variables and family socioeconomic factors.

The samples of siblings of children and adolescents with CP and typically developed Brazilian children and adolescents were age-matched (10 to 15 years), and showed comparable frequencies in age groups, gender and socioeconomic characteristics. Siblings experienced significantly poorer QoL in relation to typically developed Brazilian children and adolescents. Dinleyici et al. (2020) also found siblings' QoL in CP significantly lower than that of controls in Turkey.¹³ Rana et al. (2015) correlated siblings' QoL with that of their brothers and sisters with CP in India, but siblings' QoL was not compared with that of typically

ARTICLE IN PRESS

JID: JPED

JrSP6P/May 1, 2024;6:26

B.L.S. Dias, M.C.C. de Rodrigues and J.L.M.B. Duarte

Table 3 Estimated regression coefficients for variables included in multivariable models for Family Quality of Life Scale and Burden Interview total scores.

Characteristic	FQoLS total scores			BI total scores		
	CF	95 % CI	P	CF	95 % CI	P
Patients' age	0.24	-0.22, 0.71	0.30	-0.38	-0.80, 0.02	0.064
Patients' sex, male vs female	1.37	-2.19, 4.93	0.44	-1.03	-2.14, 4.22	0.521
GMFCS, low impairment vs high impairment	-0.25	-4.43, 3.91	0.90	0.66	-3.06, 4.38	0.727
EDACS, low impairment vs high impairment	3.73	-1.83, 9.31	0.18	-0.69	-5.69, 4.30	0.784
GDD/ID, absent vs present	0.371	-4.64, 5.38	0.88	3.00	-1.46, 7.46	0.186
Epilepsy, absent vs present	-0.82	-4.89, 3.24	0.68	1.82	-1.80, 5.45	0.323
Family Composition, 2 legal guardians vs 1 legal guardian	-1.79	-6.12, 2.54	0.41	1.78	-2.08, 5.65	0.363
Family Economic Level, low-income vs high-income	-3.46	-7.92, 0.99	0.12	0.679	-3.32, 4.68	0.738
Educational Level, low level vs high level	4.27	0.38, 8.16	0.03	2.50	-0.99, 6.00	0.159
BI total score	-5.52	-0.66, -0.38	<0.001	—	—	—
FQoLS total score	—	—	—	-0.41	-0.52, -0.30	<0.001

Bold type indicates statistical significance.

Variables not included in the multivariable models are indicated with a dash.

Abbreviations: BI, Burden Interview; CF, coefficient; CI, confidence interval; CP, cerebral palsy; EDACS, Eating and Drinking Ability Classification System; FQoLS, Family Quality of Life Scale; GDD, global developmental delay; GMFCS, Gross Motor Function Classification System; ID, Intellectual disability.

developed children.¹⁸ Aran et al (2007) described lower mean QoL scores in siblings of children with CP than in peers of the same age in Israel. However, such mean scores were not compared to assess whether the differences were significant.¹⁹

Siblings' scores in all domains of the KIDSCREEN-27 CAW were significantly lower than those of typically developed Brazilian children and adolescents, however, these differences showed small effect sizes, except for psychological well-being, with a medium effect size. In agreement with the

Table 4 Estimated regression coefficients for variables included in multivariable models for siblings' KIDSCREEN-27 Child and Adolescent and Parent Versions total scores.

Characteristic	KIDSCREEN-27 CAW total scores			KIDSCREEN-27 PAW total scores		
	CF	95 % CI	P	CF	95 % CI	P
Siblings' age	-1.56	-2.52, -0.59	0.002	-0.76	-1.68, 0.15	0.101
Siblings' sex, male vs female	-3.48	-6.97, 6.24	0.05	1.95	-1.37, 5.28	0.248
Patients' age	-0.30	-0.80, 0.19	0.22	0.05	-0.42, 0.53	0.814
Patients' sex, male vs female	-2.57	-6.23, 1.08	0.16	-1.35	-4.85, 2.13	0.442
GMFCS, low impairment vs high impairment	0.24	-3.70, 4.20	0.90	-2.13	-5.91, 1.63	0.265
EDACS, low impairment vs high impairment	1.34	-4.81, 7.51	0.66	-1.45	-7.34, 4.42	0.624
GDD/ID, absent vs present	3.14	-1.52, 7.81	0.18	2.38	-2.07, 6.84	0.291
Epilepsy, absent vs present	-0.32	-4.09, 3.44	0.86	3.01	-0.57, 6.61	0.099
Family composition, 2 legal guardians vs 1 legal guardian	-4.89	-9.49, -0.29	0.03	-3.39	-7.78, 0.99	0.129
Family Economic Classification, low-income vs high-income	-0.73	-5.10, 3.63	0.74	-0.30	-4.48, 3.86	0.884
Educational Level, low level vs high level	-0.11	-3.98, 3.75	0.95	-1.85	-5.55, 1.83	0.321
BI total score	-0.20	-0.35, -0.05	0.007	-0.30	-0.45, -0.16	<.001
FQoLS total score	0.14	-0.01, 0.29	0.06	0.23	0.09, 0.37	0.002

Bold type indicates statistical significance.

Abbreviations: BI, Burden Interview; CF, coefficient; CI, confidence interval; CP, cerebral palsy; EDACS, Eating and Drinking Ability Classification System; FQoLS, Family Quality of Life Scale; GDD, global developmental delay; GMFCS, Gross Motor Function Classification System; ID, Intellectual disability; KIDSCREEN-27 CAW, KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version; KIDSCREEN-27 PAW, KIDSCREEN-27 Parents Version.

present results, Dinleyici et al (2020) observed the psychosocial health of siblings of children with CP was significantly lower than that of controls.¹³ Hungarian¹⁴ and Israeli¹⁵ studies found mental illness more common in siblings of children with CP than in the general population.

The authors found no significant discrepancy between self-reported and parent-reported siblings' QoL, except for the social support and peers domain on KIDSCREEN-27, in which siblings' perception was significantly more positive. This finding could be explained by an overconfidence of siblings in their peers and a more pessimistic opinion of their parents. In contrast, Dinleyici et al (2020) found a worse self-reported than parent-reported siblings' QoL.¹³

The present results showed self-reported siblings' QoL significantly worse with increasing siblings' age and caregivers' burden and in families with two legal guardians. Possibly, with increasing age and maturity, even with two guardians present at home, the siblings have realized the impact of caregivers' burden, therefore affecting their QoL.

Parent-reported siblings' QoL was lower and higher respectively as caregivers' burden and family QoL increased. It is possible that parents felt that, regardless of other characteristics, the only influences on siblings' QoL were how much the caregiver was burdened and how the family functioned.

These results show that family QoL and caregivers' burden might be extremely important for the QoL of siblings of children with CP. Given the mutual influences between individuals in a family, siblings' QoL could also be influenced by and influence CP patients' QoL, hypotheses yet to be studied.

Patients' functional, intellectual and clinical variables were not significantly correlated with self- and parent-reported siblings' QoL in this sample. Aam et al. (2007) also evidenced no correlations between siblings' QoL and patients' GMFCS levels.¹⁹

This was a single-center study, with a convenience sample, therefore, the authors cannot generalize these findings. The cross-sectional nature of the available data precludes any statement of causality. The literature gap regarding studies on family QoL and siblings' QoL in families with children with CP, the varied methodologies used in these studies and the socioeconomic and cultural differences between the countries where they were carried out, reduced the possibilities of comparisons, so the authors had to focus mainly on the interpretation of our own results. These are the main limitations. The strength of the study is its innovative character in investigating the associations between caregivers' burden, family QoL, and siblings' QoL in families of children with CP and its correlations with several variables.

Considering CP as a major cause of childhood disability, the present results reinforce the relevance of knowing the factors that influence caregivers' burden, family QoL, and siblings' QoL in CP, and of further research in these fields of knowledge, providing secure bases for the construction of supporting programs for the whole family, aimed at reducing caregivers' burden, improving family QoL, and meeting the individual needs of the siblings. Future multicenter studies may validate the generalizability of these findings.

Conflicts of interest

The authors declare no conflicts of interest.

Acknowledgements

The authors are grateful to the families who participated in the study.

Supplementary materials

Supplementary material associated with this article can be found in the online version at doi:10.1016/j.jped.2024.03.010.

References

- Oskoui M, Coutinho F, Dyken M, Jetté N, Pringsheim T. An update on the prevalence of cerebral palsy: a systematic review and meta-analysis. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55:509–19.
- Sadeghi S, Fayad N, Ronen GM. Patient-reported outcome measures in pediatric epilepsy: a content analysis using World Health Organization definitions. *Epilepsia*. 2014;55:143–7.
- Zuna N, Summers JA, Turnbull AP, Hu X, Xu S. Theorizing about family quality of life. In: Kober R, ed. *Enhancing the Quality of Life of People With Intellectual Disabilities: From Theory to Practice*. London: Springer; 2010:241–78.
- Oliveira AR, Gonçalves GR, Loffred MD, Grecco LH. Avaliação da sobrecarga dos cuidadores informais através da Escala Burden Interview atendidos durante o estágio de fisioterapia em Saúde Coletiva. *Revista de Atenção à Saúde*. 2019;16:75–83.
- Glinica A, Matović L, Delalić A, Matović L. Quality of life in mothers of children with cerebral palsy. *Acta Clin Croat*. 2017;56:299–307.
- Tang WH, Chen KL, Shieh JY, Lu L, Huang CY, Simonsen RJ. Child characteristics, caregiver characteristics, and environmental factors affecting the quality of life of caregivers of children with cerebral palsy. *Disabil Rehabil*. 2016;38:2374–82.
- Davis E, Shelly A, Waters E, Boyd R, Cook K, Davern M, et al. The impact of caring for a child with cerebral palsy: quality of life for mothers and fathers. *Child Care Health Dev*. 2010;36:63–73.
- Dobhal M, Juneja M, Jain R, Sahani S, Thilaganathan D. Health-related quality of life in children with cerebral palsy and their families. *Indian Pediatr*. 2014;51:385–7.
- Koltunski A, Rosensztrauch A, Budziska P, Roszczuk J. The quality of life of Polish children with cerebral palsy and the impact of the disease on the family functioning. *J Pediatr Nurs*. 2019;47:675–82.
- Sagbosal ES, Houdipetodji D, Kpadonou TG, Beyerheide Y. Mothers' perception of cerebral palsy in a low-income country of West Africa: a cross-sectional study. *Disabil Rehabil*. 2022;44:4767–74.
- Ljubić M, Delić S, Kolčić I. Family and individual quality of life in parents of children with developmental disorders and diabetes type 1. *J Clin Med*. 2022;11:2861.
- Schertz M, Karni-Vlasel Y, Tamir A, Gendel J, Roth D. Family quality of life among families with a child who has a severe neurodevelopmental disability: Impact of family and child sociodemographic factors. *Res Dev Disabil*. 2016;53:495–106.
- Dinleyici M, Çarman KB, Özdemir C, Harmanç K, Eren M, Kirel B, et al. Quality-of-life evaluation of healthy siblings of children with chronic illness. *Balkan Med J*. 2019;37:34–42.
- Fujis M, Varga B, Holodny K. The impact of disease and sociodemographic background on children suffering from cerebral palsy. *Orv Hetil*. 2021;162:269–79.
- Levy-Zalts A, Pollak Y, Ben-Paz H. Cerebral palsy risk factors and their impact on psychopathology. *Neurol Res*. 2014;36:92–4.

ARTICLE IN PRESS

JID: PED

[mGPP May 1, 2024;6:26]

B.L.S. Dias, M.C.C. de Rodrigues and J.L.M.B. Duarte

16. Dogbe JA, Kyematemang JDA, Opoku MP, Nketsia W, Hammond C. There is family tension, but they understand...: familial and sibling relationships following the diagnosis of cerebral palsy in children in Ghana. *Int J Dev Disabil*. 2019;58:35–46.
17. Davies E, Stevenson J, McGurk H. Cerebral-palsied children's interactions with siblings—I. Influence of severity of disability, age and birth order. *J Child Psychol Psychiatry*. 1993;34:621–47.
18. Rana P, Mishra D. Quality of life of unaffected siblings of children with chronic neurological disorders. *Indian J Pediatr*. 2015;82:545–8.
19. Aran A, Shalev RS, Biran G, Gross-Tsur V. Parenting style impacts on quality of life in children with cerebral palsy. *J Pediatr*. 2007;151:56–60. 60.e1.
20. BM Jorge, Levy CC, Granato L. Cultural adaptation quality of family life scale for the Brazilian Portuguese. *Codas*. 2015;27:534–40.
21. Scarsella M. Brazilian version of the Burden Interview scale for the assessment of burden of care in carers of people with mental illnesses. *Braz J Psychiatry*. 2002;24:12–7.
22. Ravens-Sieberer U, Gosch A, Rajmil L, Erhart M, Bruhl J, Duer W, et al. KIDSCREEN-52 quality-of-life measure for children and adolescents. *Expert Rev Pharmacoecon Outcomes Res*. 2005;5:353–64.
23. Ravens-Sieberer U, Herdman M, Devine J, Otto C, Bullinger M, Rose M, et al. The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: development, current application, and future advances. *Qual Life Res*. 2014;23:791–803.
24. The KIDSCREEN Group Europe. The KIDSCREEN Questionnaires: Quality of Life Questionnaires For Children and Adolescents. Lengerich: Pabst Science Publishers; 2006.
25. Júnior Farias JC, MR Loch, Neto Lima AJ, Sales JM, Ferreira FE. Reproducibility, internal consistency, and construct validity of KIDSCREEN-27 in Brazilian adolescents. *Cad Saude Publica*. 2017;33:e00131116. <https://doi.org/10.1590/0102-311x00131116>.
26. Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa [Internet]. São Paulo: Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa; c2014-2022 [cited 2021 mar 21]. *Critério Brasil*. 2021. Available from: <https://www.abep.org/critério-brasil>.
27. Hiratake E, Matsukura TS, Pfeiffer U. Cross-cultural adaptation of the Gross Motor Function Classification System into Brazilian-Portuguese (GMFCS). *Rev Bras Fisioter*. 2010;14:537–44.
28. Silvério CC, Sellers D, Curcio D, Roberto Gonçalves ML. Eating and drinking ability classification system – EDACS: cross-cultural adaptation of the Brazilian Portuguese. *Disturb Comun*. 2022;34:e564–70.
29. Kusi-Mensah K, Nuamah ND, Wilmaker S, Agorinya J, Saidu R, Martyn-Dickens C, et al. Assessment tools for executive function and adaptive function following brain pathology among children in developing country contexts: a scoping review of current tools. *Neuropsychol Rev*. 2022;32:499–82.
30. Fisher RS, Acevedo C, Arzimanoglou A, Bogacz A, Cross JH, Elger CE, et al. ILAE official report: a practical clinical definition of epilepsy. *Epilepsia*. 2014;55:475–82.

APÊNDICE H – Artigo “Quality of life of families and siblings of children and adolescents with meningocele” publicado online (no prelo para publicação impressa) no periódico Child: Care, Health & Development

Received: 12 June 2023 | Revised: 18 October 2023 | Accepted: 8 February 2024
DOI: 10.1111/cch.13246

RESEARCH ARTICLE

WILEY

Quality of life of families and siblings of children and adolescents with meningocele

Bruno Leonardo Scofano Dias¹ | Maura Calixto Cecherelli de Rodrigues² |
José Luiz Muniz Bandeira Duarte²

¹SARAH Network of Rehabilitation Hospitals; Programa de Pós-Graduação em Ciências Médicas, Faculdade de Ciências Médicas, Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ), Rio de Janeiro, Brazil

²Department of Pediatrics, Faculty of Medical Sciences, Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ), Rio de Janeiro, Brazil

Correspondence:

Bruno Leonardo Scofano Dias, Pediatrician; MSc; PhD Candidate, SARAH Network of Rehabilitation Hospitals; Programa de Pós-Graduação em Ciências Médicas, Faculdade de Ciências Médicas, Universidade do Estado do Rio de Janeiro (UERJ), Avenida Vice-Presidente José de Alencar 1455 bloco 5 apartamento 104, Jacarepaguá, Rio de Janeiro, RJ, Brazil.
Email: brunoscfoano93@gmail.com

Funding information:

This study was funded by the authors themselves.

Abstract

Background: Children with meningocele may require continuous care. Consequently, there is a risk for caregiver burden and impact on family quality of life (QoL), including siblings' QoL. Some studies analysed caregivers' burden and family QoL separately. However, none of these studies evaluated siblings' QoL and the associations between these three dimensions. This study investigated the associations between caregivers' burden, family QoL and siblings' QoL in Brazilian families of children with meningocele and its correlations with sociodemographic, functional and clinical variables. Siblings' QoL was specifically assessed using as a parameter the QoL of typically developed Brazilian children.

Methods: One hundred and fifty families, 150 caregivers and 68 siblings completed the Family Quality of Life Scale, Burden Interview, KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version and Parents Version questionnaires.

Results: Most families and caregivers reported a high family QoL and a low caregiver burden. Family QoL was significantly lower as caregivers' burden increased. Caregiver's burden was significantly lower with increasing family QoL levels. Self-reported siblings' QoL was significantly worse than that of typically developed peers. There were no significant differences between self and parent-reported siblings' QoL. Self-reported siblings' QoL was significantly worse as their age increased and better with increasing family QoL levels. Parent-reported siblings' QoL was significantly worse with increasing levels of caregiver's burden and significantly better as family QoL increased. There were no significant associations with functional and clinical variables.

Conclusions: Despite the cross-sectional nature of the available data precludes any statements of causality, our results reinforce the relevance of knowing the factors that influence the QoL of families and siblings of children and adolescents with meningocele and the relevance of actions aimed at reducing caregivers' burden, improving family QoL and meeting siblings' individual needs. Future multicenter studies may validate the generalizability of our findings.

KEYWORDS

family, meningocele, quality of life, siblings

1 | INTRODUCTION

Meningomyelocele occurs in about 1/1000 births worldwide, being one of the most common congenital malformations. Exposed neural tissue degenerates in utero, resulting in motor and sensory neurologic deficits, neurogenic bladder and bowels, hydrocephalus, Chiari II malformation and orthopaedic abnormalities (Addick, 2010; Copp et al., 2015; Şeker Abanoz et al., 2020). Both functional impairments and clinical comorbidities require continuous care. Consequently, there is a risk for burden on the main caregiver and impact on family quality of life (QoL), including siblings' QoL.

QoL is a multidimensional construct, covering subjective appraisal of personal feelings, social relationships, local environment, societal values and material conditions (Sadeghi et al., 2014). Family QoL is a dynamic sense of well-being, collectively defined and subjectively informed by its members (Zuna et al., 2010). Caregivers' burden represents objective and subjective impairments associated with the care provided (Oliveira et al., 2019).

Caregivers' burden and QoL of parents of children and adolescents with meningomyelocele have already been associated with patients' functional (Buono & Nogueira, 2020; Gwaleri et al., 2017) and clinical (Buono & Nogueira, 2020; Valença et al., 2012) variables, caregivers' mental health and social impact (Rotali et al., 2012) and family income and composition (Buono & Nogueira, 2020; Valença et al., 2012).

However, the family QoL concept involves the entire family system. This construct must be defined and informed by all family members, not just parents/caregivers. Family QoL in meningomyelocele was much less studied than parents/caregivers' QoL. Two studies analysed some issues on family functioning, but not family QoL (Holmbeck et al., 2002; Simpson et al., 2022). Some authors have actually studied family QoL in meningomyelocele using different scales with varying results (Nicolais et al., 2016; Spaulding & Morgan, 1986; Wegner & Donders, 2000). However, none of these papers correlated family QoL and caregivers' burden.

Caregivers' burden may result in a reduction in remaining attention time for siblings, who may consequently feel neglected and experience negative emotions (Dirleydi et al., 2019; Martiano & Scheuer, 2005). Only a few studies have been developed regarding life dimensions of siblings of children and adolescents with meningomyelocele, such as self-concept, adjustment and siblings relationship (Bellin et al., 2009; Bellin & Rice, 2009; Kibutz, 1994). Higher satisfaction with family (Bellin et al., 2009; Bellin & Rice, 2009), greater social support (Bellin et al., 2009) and level of empathy for their siblings with meningomyelocele were influencing factors (Kibutz, 1994). No papers were found regarding specifically siblings' QoL.

This study aimed to assess the following: (1) the associations between family QoL and caregivers' burden in families of children and adolescents with meningomyelocele and its correlations with sociodemographic, functional and clinical variables and (2) the QoL of siblings of children and adolescents with meningomyelocele using as a parameter the QoL of typically developed Brazilian children and adolescents and its correlations with sociodemographic, functional and clinical variables, family QoL and caregivers' burden. Our hypotheses were as

Key Messages

- Family quality of life was significantly worse in those with higher caregivers' burden.
- Caregivers' burden was significantly lower as family quality of life increased.
- Siblings had significantly worse quality of life than that of typically developed Brazilian children and adolescents.
- Self-reported siblings' quality of life was significantly worse with increasing siblings' age and better with increasing family quality of life levels.
- Parent-reported siblings' quality of life was worse and better, respectively, as caregivers' burden and family quality of life increased.

follows: (1) family QoL and caregivers' burden levels would be inversely associated, and worse sociodemographic, functional and clinical indicators would predict lower levels of family QoL and higher levels of caregivers' burden; (2) siblings' QoL levels would be lower than that of typically developed Brazilian children and adolescents, and worse sociodemographic, functional, clinical, family QoL and caregivers' burden indicators would predict poorer levels of siblings' QoL.

2 | METHOD

2.1 | Design

The study used a cross-sectional, descriptive and analytical design.

2.2 | Participants and setting

Participants were recruited from a convenience sample of children and adolescents with meningomyelocele consecutively treated at the SARAH International Center for Neurorehabilitation and Neurosciences, Rio de Janeiro, Brazil. Families and typically developing 10 to 15 years aged siblings of 2 to 16 years aged patients with meningomyelocele were included. The study was approved by the Research Ethics Committee of the SARAH Network of Rehabilitation Hospitals (Certificate of Submission for Ethics Assessment 5038121.1.0000.0022). Data were collected between November 2021 and November 2022. The final sample comprised 150 families, 150 caregivers, 150 patients and 68 siblings.

2.3 | Procedure

Patients' legal guardians and siblings were approached by the researcher. The objectives of the study were explained. Legal

guardians and siblings filled out informed consents to the research and to publication of the results. Families, caregivers and siblings completed the instruments for measuring family QoL, caregiver burden, siblings' QoL and family economic classification in their homes and returned them to the researchers at the institution. Other demographic, functional and clinical data on patients and sociodemographic data on families and on siblings were collected from the patient's electronic medical record.

24 | Measures

24.1 | Family QoL

Family Quality of Life Scale (FQoLS) was used to analyse family QoL. The instrument was designed to evaluate QoL in families with children with disabilities. Responses vary from 1 to 5 in each of the 25 items. The total score is obtained through the sum of all items (Jorge et al., 2015). Satisfaction levels are classified as very dissatisfied (25 to 44 points), dissatisfied (45 to 64 points), moderately satisfied (65 to 84 points), satisfied (85 to 104 points) and very satisfied (105 to 125 points).

24.2 | Caregivers' burden

Caregivers' burden was assessed using the Burden Interview (BI). The instrument assesses caregivers' burden associated with functional and behavioural aspects of patients with disabilities. Responses vary from zero to 4 in each of the 22 items. The total score is obtained through the sum of all items. Burden levels are classified as absent (≤ 21 points), mild to moderate (22 to 40 points), moderate to severe (41 to 60 points) and severe (≥ 61 points) (Scazufca, 2002).

24.3 | Siblings' QoL

Siblings' QoL was evaluated using the self-report and parent-proxy versions of the generic KIDSCREEN measure. KIDSCREEN (versions with 52, 27 and 10 items) is designed for 8 to 18 years olds (Ravens-Sieberer et al., 2005; Ravens-Sieberer et al., 2014; The KIDSCREEN Group Europe, 2006). We used KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version (KIDSCREEN-27 CAV) and Parent Version (KIDSCREEN-27 PAV). These versions comprise 27 items distributed in five domains: physical well-being, psychological well-being, autonomy and relationship with parents, social support and peers and school environment. Scores are coded from 1 to 5. Raw scores are obtained by summing items in each QoL domain. Rasch person parameters are then allocated to each score and transformed to a zero to 100 scale (Ravens-Sieberer et al., 2005; Ravens-Sieberer et al., 2014; The KIDSCREEN Group Europe, 2006).

24.4 | QoL of typically developed Brazilian children and adolescents

The QoL of typically developed Brazilian children and adolescents was defined using a sample of individuals aged 10 to 15 years, who underwent QoL assessment for reproducibility, internal consistency and construct validity of the KIDSCREEN-27 in Brazil (Júnior et al., 2017).

24.5 | Family economic classification and educational level

Family economic classification was assessed using Brazil Criteria. This scoring system considers main educational level (illiterate to undergraduate education), consumer goods (home appliances), housing conditions and access to public services (sanitation and transport facilities). The sum of all items classifies the family into decrescent economic classes A, B, C, D and E (Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa, 2021).

24.6 | Patients' functional gross motor capacity

Patients' functional capacity was analysed using the Hoffer's criteria as follows: (1) community walker, (2) home walker, (3) nonfunctional walker and (4) nonwalker (Hoffer et al., 1973).

24.7 | Patients' clinical indicators

Patients' clinical indicators were as follows: (1) need for intermittent bladder catheterisation and (2) faecal incontinence, defined as the loss of stool in places inappropriate to the social context at least once (Koppen et al., 2016; Resquin et al., 2008).

FQoLS (Jorge et al., 2015), BI (Scazufca, 2002) and KIDSCREEN-27 (Júnior et al., 2017) are translated and adapted for the Portuguese language spoken in Brazil and for Brazilian culture. FQoLS showed a satisfactory reliability (Jorge et al., 2015). BI exhibited good internal consistency and construct validity (Scazufca, 2002) and KIDSCREEN-27 achieved satisfactory reproducibility, internal consistency and construct validity (Júnior et al., 2017).

24.8 | Variables

Continuous variables

Continuous variables were as follows: siblings' and patients' age in years and months, FQoLS total score, BI total score and KIDSCREEN-27 CAV and PAV total and domains scores.

Categorical variables

Categorical variables were as follows: siblings 10 to 12 and 13 to 15 years old; male and female sex; patients 2 to 5, 6 to 9, 10 to

12, 13 to 16 years old; male and female sex; low motor impairment (Hoffer 1 and 2) / high motor impairment (Hoffer 3 and 4); need for intermittent bladder catheterisation absent / present; faecal incontinence absent/present; caregivers' burden (absent, mild to moderate, moderate to severe and severe); family composition with two legal guardians (father(s) and mother(s) and grandfather and grandmother) / one legal guardian (father or mother and grandfather or grandmother); high-income (economy classes A and B) / low-income family (economy classes C and D/E); low educational (illiterate to incomplete high school) / high educational level (high school to complete undergraduate education); and family QoL (very dissatisfied, dissatisfied, moderately satisfied, satisfied, very satisfied).

2.5 | Statistical analysis

Data were summarised using mean (standard deviation [SD]) or median (interquartile range [IQR]) for continuous variables and frequency (percent) for categorical variables. There were no missing data. Variable distributions were visualised and quality-checked with bar and violin plots.

Comparisons of domains and total scores on KIDSCREEN-27 CAV of siblings and typically developed Brazilian children and adolescents, and comparisons of domains and total scores on siblings' KIDSCREEN-27 CAV and KIDSCREEN-27 PAV were performed using *t*-test (parametric) and Wilcoxon test (nonparametric), respectively, for samples with and without normal distribution. Effect sizes and 95% confidence intervals (CI) of each of these comparisons were calculated.

Multivariable models were constructed for FQoL, BI, KIDSCREEN-27 CAV and KIDSCREEN-27 PAV total scores. We checked for linearity, normality, collinearity, autocorrelation and homoscedasticity. Estimates were presented with 95% CI. Two-sided *p*-values less than 0.05 were considered significant. All statistical analyses were performed in Jamovi 2.3.16 (Jamovi, 2022). STROBE reporting guidelines were followed.

3 | RESULTS

3.1 | Sample characteristics

There were 150 families, mostly with two legal guardians, low-income, high educational level and high family QoL (82.6%). Median (IQR) FQoL total score was 96.5 (89.0–109.0). The 150 caregivers were female, with a predominant low caregiver's burden (80%). Median (IQR) BI total score was 29.0 (21.0–37.7) (Table 1).

There were 150 patients (median age 6 years, IQR 4 years–9 years; 64 aged 2 to 9 years; 80 females), mostly with high motor impairment, in need for intermittent bladder catheterisation and with faecal incontinence. Sixty-eight siblings were assessed (median age 13 years, IQR 11 years–14 years; 36 aged 13 to 15 years; 34 males). These characteristics are summarised in Table 1.

TABLE 1 Characteristics of families, caregivers, patients and siblings.

Characteristic	N (%) or (IQR)
Families	150
Two legal guardians	118 (78.6)
One legal guardian	32 (21.4)
Low income	44 (29.3)
High income	106 (70.7)
Low educational level	32 (21.4)
High educational level	118 (78.6)
Median (IQR) family quality of life scale total score	96.5 (89.0–109.0)
Very dissatisfied with FQoL	0 (0.0)
Dissatisfied with FQoL	1.0 (0.7)
Moderately satisfied with FQoL	25 (16.7)
Satisfied with FQoL	72 (48.0)
Very satisfied with FQoL	52 (34.6)
Caregivers' burden	150
Median (IQR) burden interview total score	29.0 (21.0–37.7)
Absent burden	35 (23.3)
Mild to moderate burden	85 (56.7)
Moderate to severe burden	26 (17.3)
Severe burden	4 (2.7)
Patients	150
Age (years) median (IQR)	6 (4–9)
2–5 years	64 (42.7)
6–9 years	52 (34.6)
10–12 years	21 (14.0)
13–16 years	13 (8.7)
Male	70 (46.7)
Female	80 (53.3)
Low motor impairment	61 (40.6)
High motor impairment	89 (59.4)
Need for bladder intermittent catheterisation - present	136 (90.7)
Need for bladder intermittent catheterisation - absent	14 (9.3)
Faecal incontinence - present	99 (66.0)
Faecal incontinence - absent	51 (34.0)
Siblings	68
Age (years) median (IQR)	13 (11–14)
10–12 years	32 (47.1)
13–15 years	36 (52.9)
Male	34 (50.0)
Female	34 (50.0)

Abbreviation: IQR, interquartile range.

The sample of typically developed Brazilian children and adolescents comprised 1321 individuals (752 aged 10 to 12 years; 709 females), mostly from low-income families.

3.2 | Univariable models

Siblings' self-reported QoL (KIDSCREEN-27 CAV domains and total mean scores) was significantly lower than that of typically developed Brazilian children and adolescents (KIDSCREEN-27 CAV domains and total mean scores) as follows: physical well-being ($p = 0.005$; 95% CI -11.7 to -3.7 ; small effect size), psychological well-being ($p < .001$; 95% CI -12.9 to -5.7 ; medium effect size), school environment ($p = 0.013$; 95% CI -8.0 to -0.5 ; small effect size) and total ($p < .001$; 95% CI -8.0 to -2.2 ; small effect size), except for autonomy and relationship with parents ($p = 0.767$; 95% CI -4.2 to 3.0 ; small effect size) and social support and peers ($p = 0.472$; 95% CI -6.9 to 3.1 ; small effect size) domains (Table 2).

There were no significant differences between self and parent-reported siblings' QoL (respectively KIDSCREEN-27 CAV and KIDSCREEN-27 PAV domains and total median scores), except for the social support and peers domain, in which siblings' perception was significantly more positive ($p = 0.005$; 95% CI 2.5 to 10.0) (Figure 3).

3.3 | Multivariable models

Family QoL (FQoLS total scores) was significantly lower as caregivers' burden (BI total scores) increased (95% CI -0.88 to -0.51). Caregiver's burden on BI total scores was significantly lower with increasing levels of family QoL (FQoLS total scores) (95% CI -0.62 to -0.38) (Table 3).

Self-reported siblings' QoL (KIDSCREEN-27 CAV total scores) was significantly lower as their age increased (95% CI -3.59 to -0.60) and significantly higher with increasing family QoL (FQoLS total scores) levels (95% CI 0.20 to 0.67). Parent-reported siblings' QoL (KIDSCREEN-27 PAV total scores) was significantly lower with increasing levels of caregiver's burden (BI total scores) (95% CI -0.99 to -0.09) and significantly higher as family QoL (FQoLS total scores) increased (95% CI 0.21 to 0.70) (Table 4).

4 | DISCUSSION

To the best of our knowledge, this study is the first to specifically analyse siblings' QoL and the associations between family QoL,

TABLE 2 Comparison of KIDSCREEN-27 child and adolescent version mean scores between siblings and typically developed Brazilian children and adolescents.

	KIDSCREEN-27 child and adolescent version		P	95% CI		Effect size
	Siblings Mean (SD)	TDBCA Mean (SD)		Inferior	Superior	
n = 68						
Phy WB	70.7 (17.2)	77.7 (14.1)	0.005	-11.7	-3.7	-0.396
Psy WB	76.7 (15.4)	85.7 (12.1)	<0.001	-12.9	-5.7	-0.649
ARP	76.0 (15.2)	77.0 (15.8)	0.767	-4.2	3.0	0.041
SSP	77.4 (18.0)	81.9 (16.5)	0.472	-6.9	3.1	-0.101
SE	81.5 (13.1)	85.5 (14.5)	0.013	-8.0	-0.5	-0.348
Total	76.1 (12.0)	81.3 (10.5)	<0.001	-8.0	-2.2	-0.430

Note: Bold type indicates statistical significance.

Abbreviations: ARP, autonomy and relationship with parents; CI, confidence interval; Phy WB, physical well-being; Psy WB, psychological well-being; SE, school environment; SSP, social support and peers; TDBCA, typically developed Brazilian children and adolescents.

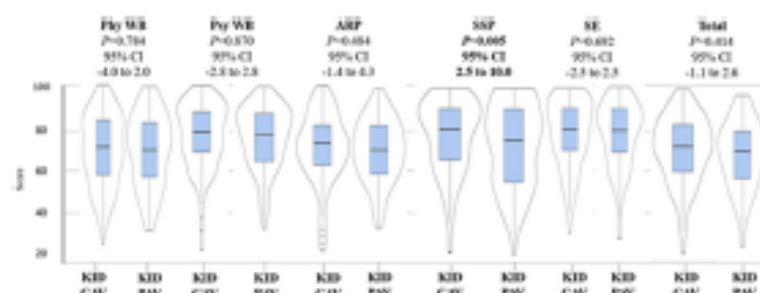


FIGURE 1 KIDSCREEN-27 child and adolescent version and parent version domains and total median scores comparisons. Bold type indicates statistical significance. Abbreviations: ARP, autonomy and relationship with parents; CI, confidence interval; KIDCAV, KIDSCREEN-27 child and adolescent version; KIDPAV, KIDSCREEN-27 parent version; Phy WB, physical well-being; Psy WB, psychological well-being; SE, school environment; SSP, social support and peers

TABLE 3 Estimated regression coefficients for variables included in multivariable models for family quality of life scale and burden interview total scores

Characteristic	FQoLS total scores			BI total scores		
	CF	95% CI	P	CF	95% CI	P
Patient's age	-	-	-	-0.27	-0.76, 0.21	0.274
Patient's age, 2-9 years versus 10-16 years	-2.53	-7.30, 2.22	0.294	-	-	-
Patient's sex, male versus female	0.55	-3.32, 4.42	0.779	3.13	-0.17, 6.45	0.063
Hoffer, LMI versus HMI	-1.05	-5.15, 3.04	0.612	2.57	-0.95, 6.09	0.151
IBC, absent versus present	4.26	-4.40, 10.9	0.208	-0.90	-6.71, 4.89	0.758
FI, absent versus present	-1.55	-5.89, 2.79	0.481	1.89	-1.91, 5.70	0.327
FC, 2 LG versus 1 LG	-0.38	-5.24, 4.47	0.875	1.90	-2.28, 6.10	0.370
FEC, LI versus HIEL	-4.12	-8.58, 0.33	0.069	-1.62	-5.53, 2.29	0.414
EL, LEL versus HEL	1.77	-3.10, 6.66	0.473	3.17	-1.02, 7.37	0.138
BI total score	-0.67	-0.83, -0.51	<0.001	-	-	-
FQoLS total score	-	-	-	-0.50	-0.62, -0.38	<0.001

Note: Bold type indicates statistical significance. Variables not included in the multivariable models are indicated with a dash.

Abbreviations: BI, Burden Interview; CF, coefficient; CI, confidence interval; FI, fecal incontinence; FQoLS, Family Quality of Life Scale; HEL, High educational level; HI, High Income; HMI, High motor Impairment; IBC, Intermittent bladder catheterization; LEL, low educational level; LG, legal guardian; LI, low Income; LMI, low motor Impairment.

TABLE 4 Estimated regression coefficients for variables included in multivariable models for siblings' KIDSCREEN-27 child and adolescent and parent versions total scores

Characteristic	KIDSCREEN-27 CAV total scores			KIDSCREEN-27 PAV total scores		
	CF	95% CI	P	CF	95% CI	P
Siblings' age	-2.10	-3.59, -0.60	0.007	-1.22	-2.79, 0.34	0.125
Siblings' sex, male versus female	-5.03	-10.0, 0.02	0.051	-3.92	-9.38, 1.52	0.155
Patient's age	-	-	-	0.11	-0.72, 0.95	0.784
Patient's age, 2-9y versus 10-16y	-4.68	-13.2, 3.93	0.280	-	-	-
Patient's sex, male versus female	5.45	0.13, 11.0	0.056	2.20	-3.46, 7.86	0.440
Hoffer, LMI versus HMI	1.01	-4.42, 6.45	0.710	1.91	-3.93, 7.75	0.515
IBC, absent versus present	1.19	-8.61, 11.0	0.808	-1.58	-12.0, 8.90	0.763
FI, absent versus present	-2.24	-7.80, 3.30	0.421	3.58	-2.45, 9.62	0.239
FC, 2 LG versus 1 LG	-3.20	-10.3, 3.92	0.371	-	-	-
FEC, LI versus HIEL	3.37	-2.31, 9.06	0.240	-2.94	-9.09, 3.21	0.343
EL, LEL versus HEL	-3.91	-9.83, 2.00	0.191	-2.46	-8.90, 3.97	0.447
BI total score	-0.01	-0.23, 0.23	0.977	-0.34	-0.59, -0.09	0.008
FQoLS total score	0.43	0.20, 0.67	<0.001	0.45	0.21, 0.70	<0.001

Note: Bold type indicates statistical significance. Variables not included in the multivariable models are indicated with a dash.

Abbreviations: BI, Burden Interview; CF, coefficient; CI, confidence interval; FI, fecal incontinence; FQoLS, Family Quality of Life Scale; HEL, High educational level; HI, High Income; HMI, High motor Impairment; IBC, Intermittent bladder catheterization; KIDSCREEN-27 CAV, KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version; KIDSCREEN-27 PAV, KIDSCREEN-27 Parents Version; LEL, low educational level; LG, legal guardian; LI, low Income; LMI, low motor Impairment.

caregivers' burden and siblings' QoL in families of children and adolescents with meningomyelocele.

In the present sample, most families declared a high family QoL according to FQoLS scores. Other studies reached different results. Wigner and Donders (2000) used the Family Assessment Device (FAD) in families of children with cerebral palsy, meningomyelocele and other limb deficiencies. However, the study did not have as its

primary objective the analysis of family QoL but used it as a variable to explain parenting distress levels. The three groups exhibited the least level of adaptive functioning which significantly predicted the parenting distress level. As the primary objectives of the studies were different, we were unable to compare the results. Nicolais *et al.* (2016) also used the FAD in families of children with meningomyelocele. Families described a higher empathy than the normative sample,

the majority were cohesive, with a good family communication. However, they mostly expressed a low or very low family satisfaction. As their results were conflicting, we also found it difficult to compare them with ours. Spaulding and Morgan (1986) did not report any negative impact on family QoL measured on Family Environment Scale (FES). In agreement with our findings, they also did not find an association with the severity of the child's motor disability. Holmbeck *et al.* (2002) found that low-income families were less cohesive in FES. In our sample, there were mostly high-income families. The socioeconomic disparity between the samples could explain the different results of the studies. Simpson *et al.* (2022) study results showed higher family functioning levels in PediQL 4.0 Family Impact Mode than families with children with other chronic health conditions and healthy control samples. PQoLS was constructed only for families with children with disabilities, so we did not compare it with families with children with other conditions or with typical development.

Our results showed that caregivers mostly expressed a low burden according to BI scores. Buoro and Nogueira (2020) also used BI, and the majority of caregivers were classified between no burden to moderate burden. Cavalari *et al.* (2017) and Valença *et al.* (2012) applied the Caregiver Burden Scale with, respectively, lower and higher caregivers' burden levels. In our sample, caregivers had higher socioeconomic and educational levels and patients had a lower frequency of faecal incontinence. These differences between the samples may explain the discrepancy between our results and those of Valença *et al.* (2012).

Family QoL was significantly lower as caregivers' burden increased, perhaps due to the reduced time and attention for the family. Functional and clinical variables were not significantly correlated with family QoL.

Caregivers' burden was significantly lower as family QoL increased. Functional and clinical variables were not significantly associated with caregivers' burden. Other authors found that all correlations among caregivers' QoL and burden were negative (Buoro & Nogueira, 2020).

The samples of siblings of children and adolescents with meningocele and typically developed Brazilian children and adolescents were age matched (10 to 15 years), with comparable socioeconomic characteristics. Siblings experienced significantly poorer self-reported QoL in relation to typically developed Brazilian peers, except for autonomy and relationship with parents and social support and peers domains on KIDSCREEN-27 CAV. That is, despite the globally impaired QoL, siblings' autonomy and social relationships with their parents and peers were preserved. Probably, the siblings realised that burden generated a less parental attention time, and not a parents' preference between siblings, leading to a feeling of trust regarding their parents.

There was no significant discrepancy between self- and parent-reported siblings' QoL, except for social relationships with their parents and peers domain on KIDSCREEN-27, in which siblings' perception was more positive. These results show that despite the burden on the parents, they were able to perceive the characteristics of their children in different dimensions. The difference found in social

support and relationship with peers probably derives from a more confident perception of siblings in their friendships, in contrast to a more mature or even pessimistic opinion of their parents.

Self-reported siblings' QoL was significantly worse as their age increased and better with increasing family QoL levels. Parent-reported siblings' QoL was significantly worse with increasing levels of caregiver's burden and significantly better as family QoL increased. Functional and clinical variables were not significantly correlated with siblings' QoL. It is possible that parents felt that the only influences on siblings' QoL were how much the caregiver was burdened and how the family functioned.

The findings of this study show that family QoL and caregivers' burden might be extremely important for the QoL of siblings of children with meningocele. Given the mutual influences between individuals in a family, siblings' QoL could also be influenced by and influence patients' QoL, hypotheses yet to be studied.

This was a single centre study with a convenience sample; therefore, we cannot generalise our findings. Moreover, the literature gap regarding studies on family QoL and siblings' QoL in families with children with meningocele reduced the possibilities of comparisons, so the focus was mainly on the interpretation of our own results. Intermittent bladder catheterisation and faecal incontinence were chosen as patients' clinical indicators as these are children's needs that bring a daily workload to caregivers. Other clinical features, such as hospitalisations and the involvement of other systems, also impact burden and QoL but not on a daily basis. Relying solely on these two indicators to analyse the association of clinical characteristics was fragile and did not allow for conclusive results. These are our main limitations.

The strength of the study is its innovative character in investigate siblings' QoL and the associations between caregivers' burden, family QoL, and siblings' QoL in families of children with meningocele.

The cross-sectional nature of the available data precludes any statements of causality. Family QoL was significantly worse in those with higher caregivers' burden. Caregivers' burden was significantly lower as family QoL increased. Family QoL and caregivers' burden were important significant influencing factors for each other. Siblings had significantly worse QoL than that of typically developed Brazilian children and adolescents. Self-reported siblings' QoL was significantly worse as their age increased and better with increasing family QoL levels, and parent-reported siblings' QoL was worse and better, respectively, as caregivers' burden and family QoL increased.

Meningocele is one of the most common congenital malformations (Adick, 2010; Copp *et al.*, 2015; Şeker Albanoz *et al.*, 2020). The family is the most immediate environment for the child's growth and socialisation (Ljubić *et al.*, 2022), and the sibling relationship is the longest in human life (Reha *et al.*, 2019). Our results reinforce the relevance of knowing the factors that influence the three dimensions studied, and of further research in these fields of knowledge. Our findings can provide secure bases for the construction of supporting programmes for the whole family (not only for caregivers/parents), aimed at reducing caregivers' burden, improving family QoL and

meeting the individual needs of the siblings. Future multicenter studies may validate the generalizability of our findings.

AUTHOR CONTRIBUTIONS

Bruno Leonardo Scoffano Dias: Conceptualization; methodology; software; data curation; supervision; formal analysis; validation; investigation; funding acquisition; visualization; project administration; resources; writing—review and editing; writing—original draft. Maíra Calvão Cecherelli de Rodrigues: Conceptualization; methodology; software; validation; formal analysis; supervision; resources; visualization; funding acquisition; project administration; writing—review and editing; writing—original draft. José Luiz Muniz Bandeira Duarte: Conceptualization; methodology; software; validation; formal analysis; supervision; funding acquisition; visualization; project administration; resources; writing—original draft; writing—review and editing.

ACKNOWLEDGEMENTS

We are grateful to the families who participated in the study.

CONFLICT OF INTEREST STATEMENT

The authors declare that they had no interests which might be perceived as posing a conflict or bias.

DATA AVAILABILITY STATEMENT

The data that support the findings of this study are available on request from the corresponding author. The data are not publicly available due to privacy or ethical restrictions.

ETHICS STATEMENT

The authors declare that ethical approval was granted from ethic committee of SARAH Network of Rehabilitation Hospitals.

PATIENT CONSENT STATEMENT

The authors declare that ethical informed written consent was sought from caregivers and siblings before data collection.

PERMISSION TO REPRODUCE MATERIAL FROM OTHER SOURCES

The authors declare that material from other sources has not been reproduced.

REFERENCES

- Adrick, N. S. (2010). Fetal myelomeningocele: Natural history, pathophysiology, and in-utero intervention. *Seminars in Fetal & Neonatal Medicine*, 15(1), 9–14. <https://doi.org/10.1016/j.sfn.2009.05.002> Epub 2009 Jun 18. PMID: 19540177; PMCID: PMC248127
- Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa: Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa: c2014–2022 [cited 2021 mar 21]. *Critério Brasil* 2021. Available from: <http://www.abep.org/critério-brasil>
- Bellin, M. H., Bentley, K. J., & Sawin, K. J. (2009). Factors associated with the psychological and behavioral adjustment of siblings of youths with spina bifida. *Families, Systems & Health*, 27, 1–15. <https://doi.org/10.1037/a0014839>
- Bellin, M. H., & Rice, K. M. (2009). Individual, family, and peer factors associated with the quality of sibling relationships in families of youths with spina bifida. *Journal of Family Psychology*, 23(1), 39–47. <https://doi.org/10.1037/a0014381> PMID: 19203158
- Buaro, R. S., & Nogueira, M. P. (2020). Quality of life and challenges of family members of children with meningomyelocele. *Acta Ortop Bras*, 28(4), 291–295. <https://doi.org/10.1590/S1413-785220202806237160> PMID: 33328785; PMCID: PMC723383
- Cavalieri, K. N., Heremoto Filho, P. T., Caldeira, S. M., Nunes, H. R. C., Lima, F. M. A., & De Avila, M. A. G. (2017). Functional independence of children with myelomeningocele: Is it associated with the informal caregiver's burden? *Journal of Pediatric Nursing*, 34, 232–235. <https://doi.org/10.1016/j.pedn.2017.07.005> Epub 2017 Jul 14. PMID: 28888508
- Copp, A. J., Adrick, N. S., Chitty, L. S., Fletcher, J. M., Holmbeck, G. N., & Shaw, G. M. (2015). Spina bifida. *Nature Reviews Disease Primers*, 1(1), 15007. <https://doi.org/10.1038/nrdp.2015.7> PMID: 27189555; PMCID: PMC4898641
- Dirley, M., Çamcı, K. B., Özdemir, C., Hamancı, K., Erer, M., Könel, B., et al. (2019). Quality-of-life evaluation of healthy siblings of children with chronic illness. *Balkan Medical Journal*, 37(1), 34–42. <https://doi.org/10.4274/balkanmedj.galenos.2019.2019.7142> Epub 2019 Oct 24. PMID: 31647208; PMCID: PMC6934013
- Hoffer, M. M., Fehnel, E., Perry, R., Perry, J., & Barnett, C. (1979). Functional ambulation in patients with myelomeningocele. *The Journal of Bone and Joint Surgery. American Volume*, 55(1), 137–148. PMID: 4570891. <https://doi.org/10.2106/00004623-197955010-00014>
- Holmbeck, G. N., Coakley, R. M., Hommeyer, J. S., Shapiro, W. E., & Westhoven, V. C. (2002). Observed and perceived dyadic and systemic functioning in families of preadolescents with spina bifida. *Journal of Pediatric Psychology*, 27(2), 177–189. <https://doi.org/10.1093/jpepsy/27.2.177> PMID: 11821501
- Jorge, B. M., Levy, C. C., & Granato, L. (2015). Cultural adaptation quality of family life scale for the Brazilian Portuguese. *Qualis*, 27(4), 534–540. English, Portuguese. <https://doi.org/10.1590/Q2317-1782/20152014142> PMID: 26691617
- Júnior, F. J. C., Lodi, M. R., Neto, L. A. J., Sales, J. M., & Ferreira, F. E. L. L. (2017). Reproducibility, internal consistency, and construct validity of KIDSCREEN-27 in Brazilian adolescents. *Cadernos de Saúde Pública*, 33(9), e00131116. Portuguese. <https://doi.org/10.1590/0102-311X00131116> PMID: 28977279
- Klaunig, J. A. (1994). Perceptions and concerns of the school-age siblings of children with myelomeningocele. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, 17(4), 223–231. <https://doi.org/10.3109/01460869409078307> PMID: 7649761
- Koppes, L. J., von Gontard, A., Chass, J., Cooper, C. S., Rittig, C. S., Bauer, S. B., et al. (2016). Management of functional nonretentive fecal incontinence in children: Recommendations from the international children's continence society. *Journal of Pediatric Urology*, 12(1), 56–64. <https://doi.org/10.1016/j.jpurol.2015.09.008> Epub 2015 Oct 21. PMID: 26654481
- Ujčić, M., Delin, S., & Kočić, I. (2022). Family and individual quality of life in parents of children with developmental disorders and diabetes type 1. *Journal of Clinical Medicine*, 11(10), 2861. <https://doi.org/10.3390/jcm11102861> PMID: 35628987; PMCID: PMC9145317
- Merlano, A. R., & Schaefer, C. L. (2005). Quality of life in siblings of autistic patients. *Bras J Psychiatry*, 27(1), 67–69. <https://doi.org/10.1590/S1516-44462005000100015> Epub 2005 Apr 18. PMID: 15867987
- Nicolini, C. J., Patten, P. B., Benayahu, I., Nicholas, E. G., Oliveira Pass, S. L., Quintero, L. M., & Arango-Lasprilla, J. C. (2016). Family dynamics and psychosocial functioning in children with SCI/D from Colombia, South America. *The Journal of Spinal Cord Medicine*, 39(1), 58–66. <https://doi.org/10.1177/2045772314Y0000000291> Epub 2015 Jan 13. PMID: 25582185; PMCID: PMC4725793
- Oliveira, A. R., Gonçalves, G. R., Löffel, M. D. C. M., & Grieco, L. H. (2019). Avaliação da sobrecarga dos cuidadores informais através da Escala Burden Interview atendidos durante o estágio de fisioterapia

- em Saúde Coletiva. *Revista de Alergias e Saúde*, 16(58), 75–83. <https://doi.org/10.1593/revsa.v16n58.5550>
- Raequin, A., Di Lorenzo, C., Forbes, D., Guñaldes, E., Hyams, J. S., Staleno, A., & Walker, L. S. (2006). Childhood functional gastrointestinal disorders: Child/adolescent. *Gastroenterology*, 130(5), 1527–1537. <https://doi.org/10.1053/j.gastro.2005.08.063> PMID: 16678566; PMCID: PMC17104693
- Ravens-Sieberer, U., Goisch, A., Rajmil, L., Erhart, M., Bril, J., Duer, W., Auquier, P., Power, M., Abel, T., Czorny, L., Matur, J., Crimbalmas, A., Tountas, Y., Haggård, C., Kiroe, J., & KIDSCREEN Group E. (2005). KIDSCREEN-52 quality-of-life measure for children and adolescents. *Expert Review of Pharmacoeconomics & Outcomes Research*, 5(3), 353–364. <https://doi.org/10.1586/14737167.5.3.353> PMID: 19807604
- Ravens-Sieberer, U., Herdman, M., Devine, J., Otto, C., Bullinger, M., Rowe, M., et al. (2014). The European KIDSCREEN approach to measure quality of life and well-being in children: Development, current application, and future advances. *Quality of Life Research*, 23(3), 791–803. <https://doi.org/10.1007/s1136-013-0428-3> Epub 2013 May 18. PMID: 23686556; PMCID: PMC3953538
- Ribeiro, I. C., Alecrim, M., Fernandes, O. M., & Graham-Bermann, S. (2019). Quality of sibling relationship and parental differential treatment in a sample of Portuguese adolescents. *Andar Psicologia*, 3, 341–353. <https://doi.org/10.54437/ap.3645>
- Rofail, D., McGuire, L., Hewitt, R., Colligs, A., Lindemann, M., & Abetz, L. (2012). The impact of spina bifida on caregivers. *Neurology and Therapy*, 1(1), 4. <https://doi.org/10.1007/s40120-012-0004-8> PMID: 24000210; PMCID: PMC4389037
- Sadeghi, S., Fayed, N., & Ronen, G. M. (2014). Patient-reported outcome measures in pediatric epilepsy: A content analysis using World Health Organization definitions. *Epilepsia*, 55(9), 1431–1437. <https://doi.org/10.1111/epi.12740>
- Scanzica, M. (2002). Brazilian version of the burden interview scale for the assessment of burden of care in carers of people with mental illnesses. *Brazilian Journal of Psychiatry [Internete]*, 24(1), 12–17. <https://doi.org/10.1590/S1516-44462002000100006>
- Şeker Abanoz, E., Özmen, M., Çalıkan, M., Gökyay, G., & Aydin, N. (2020). Ambulation, lesion level, and health-related quality of life in children with myelomeningocele. *Child's Nervous System*, 36(3), 611–616. <https://doi.org/10.1007/s00381-019-04348-0> Epub 2019 Aug 19. PMID: 31423555
- Simpson, T. S., Grande, L. A., Kenny, J. J., Wilson, P. E., & Peterson, R. L. (2022, 3). Child, parent, and family adjustment for patients followed in a multidisciplinary spina bifida clinic. *Top Spinal Cord Inj Rehabil*, 28, 41–58. <https://doi.org/10.46292/tscir.21-00074> Epub 2022 Aug 17. PMID: 36057123; PMCID: PMC9394072
- Spaulding, B. R., & Morgan, S. B. (1986). Spina bifida children and their parents: A population prone to family dysfunction? *Journal of Pediatric Psychology*, 11(3), 359–374. <https://doi.org/10.1093/jpepsy/11.3.359> PMID: 3534207
- The KIDSCREEN Group Europe. (2006). The KIDSCREEN questionnaire: Quality of life questionnaire for children and adolescents. Paed Science Publishers.
- Valença, M. P., de Menezes, T. A., Calado, A. A., & de Aguiar, C. G. (2012). Burden and quality of life among caregivers of children and adolescents with meningomyelocele: Measuring the relationship to anxiety and depression. *Spinal Cord*, 50(7), 553–557. <https://doi.org/10.1038/sc.2012.10> Epub 2012 Mar 6. PMID: 22391686
- Wagner, S., & Donders, J. (2000). Predictors of parental distress after congenital disabilities. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 21(4), 271–277. <https://doi.org/10.1097/00004703-200008000-00003> PMID: 10972250
- Zinn, N., Summers, J. A., Turnbull, A. P., Hu, X., & Xu, S. (2010). Theorizing about family quality of life. In R. Kober (Ed.), *Enhancing the quality of life of people with intellectual disabilities: From theory to practice* (pp. 241–278). Springer. https://doi.org/10.1007/978-90-481-9650-0_15

How to cite this article: Dias, B. L. S., de Rodrigues, M. C. C., & Duarte, J. L. M. B. (2024). Quality of life of families and siblings of children and adolescents with meningomyelocele. *Child: Care, Health and Development*, 50(2), e13246. <https://doi.org/10.1111/cch.13246>

ANEXO A – Burden Interview

No texto S refere-se a quem é cuidado pelo entrevistado. Durante a entrevista, o entrevistador usa o nome desta pessoa.

1. O Sr/Sra sente que S pede mais ajuda do que ele (ela) necessita?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

2. O Sr/Sra sente que por causa do tempo que o Sr/Sra gasta com S, o Sr/Sra não tem tempo suficiente para si mesmo (a)?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

3. O Sr/Sra se sente estressado (a) entre cuidar de S e suas outras responsabilidades com a família e o trabalho?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

4. O Sr/Sra se sente envergonhado (a) com o comportamento de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

5. O Sr/Sra se sente irritado (a) quando S está por perto?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

6. O Sr/Sra sente que S afeta negativamente seus relacionamentos com outros membros da família ou amigos?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

7. O Sr/Sra sente receio pelo futuro de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

8. O Sr/Sra sente que S depende do Sr/Sra?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

9. O Sr/Sra se sente tenso (a) quando S está por perto?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

10. O Sr/Sra sente que a sua saúde foi afetada por causa do seu envolvimento com S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

11. O Sr/Sra sente que o Sr/Sra não tem tanta privacidade como gostaria, por causa de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

12. O Sr/Sra sente que a sua vida social tem sido prejudicada porque o Sr/Sra está cuidando de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

13. O Sr/Sra não se sente à vontade de ter visitas em casa, por causa de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

14. O Sr/Sra sente que S espera que o Sr/Sra cuide dele/dela, como se o Sr/Sra fosse a única pessoa de quem ele/ela pode depender?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

15. O Sr/Sra sente que não tem dinheiro suficiente para cuidar de S, somando-se as suas outras despesas?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

16. O Sr/Sra sente que será incapaz de cuidar de S por muito mais tempo?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

17. O Sr/Sra sente que perdeu o controle da sua vida desde a doença de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

18. O Sr/Sra gostaria de simplesmente deixar que outra pessoa cuidasse de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

19. O Sr/Sra se sente em dúvida sobre o que fazer por S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

20. O Sr/Sra sente que deveria estar fazendo mais por S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

21. O Sr/Sra sente que poderia cuidar melhor de S?

☐ Nunca ☐ Raramente ☐ Algumas vezes ☐ Frequentemente ☐ Sempre

22. De uma maneira geral, quanto o Sr/Sra se sente sobrecarregado (a) por cuidar

de \$?

☐ Nem um pouco ☐ Um pouco ☐ Moderadamente ☐ Muito

☐ Extremamente

Total escala _____

ANEXO B – Family Quality of Life Scale

Quanto eu estou satisfeito referente à...

	Muito satisfeito	Satisfeito	Indiferente	Insatisfeito	Muito insatisfeito
1. A minha família gosta de passar tempo junta					
2. Os membros da minha família ajudam os filhos a se tornar independentes					
3. A minha família tem o apoio necessário para aliviar o estresse.					
4. Os membros da minha família têm amigos ou outras pessoas que fornecem apoio.					
5. Os membros da minha família ajudam os filhos com trabalhos escolares e atividades.					
6. Os membros da minha família têm transporte para ir aos lugares que necessitam.					
7. Os membros da minha família falam abertamente uns com os outros.					
8. Os membros da minha família ensinam os filhos a conviver com os outros.					
9. Os membros da minha família têm tempo para atingir seus interesses pessoais					
10. Nossa família resolve os problemas junta.					
11. Os membros da minha família apoiam uns aos outros para atingir objetivo.					
12. Os membros da minha família mostram amor e carinho um pelo outro.					
13. Minha família tem ajuda externa à sua disposição para cuidar de necessidades especiais de todos os membros da família.					
14. Os adultos da minha família ajudam os filhos a tomar boas decisões.					
15. Minha família recebe atendimento médico quando necessário.					
16. Minha família tem condições de cuidar das despesas de casa.					
17. Os adultos da minha família conhecem outras pessoas na vida dos filhos (isto é, amigos, professores).					
18. Minha família é capaz de lidar com altos e baixos da vida.					
19. Os adultos da minha família têm tempo para cuidar das necessidades individuais de cada filho.					
20. Minha família recebe atendimento odontológico, quando necessário.					
21. Minha família se sente segura em casa, no trabalho, na escola e no bairro.					
22. O membro da família com necessidades especiais tem apoio para progredir na escola ou no trabalho					
23. O membro familiar com necessidades especiais tem apoio para fazer progressos no ambiente familiar					
24. O membro familiar com necessidades especiais tem apoio para fazer amigos					
25. Sua família tem um bom relacionamento com os prestadores de serviços que trabalham com o membro com necessidades especiais					

ANEXO C – Autorização dos autores da tradução e adaptação no Brasil para uso da Family Quality of Life Scale

Beach Center Family Quality of Life Scale

Caixa de entrada



BrunoL Sdias <brunoscofano91@gmail.com>

para biamigueljorge

Prezada Dra Bianca,

Me chamo Bruno Scofano, sou pediatra do desenvolvimento e trabalho na Rede Sarah de Hospitais de Reabilitação no Rio de Janeiro.

Li o seu trabalho de validação da Beach Center Family Quality of Life Scale para o português do Brasil.

Pretendo fazer uma pesquisa em qualidade de vida de famílias com crianças com paralisia cerebral e com mielomeningocele.

Gostaria de saber quais são os passos para autorização para uso da escala e se o uso é gratuito ou requer pagamento de taxa.

Muito obrigado!

Bruno Scofano MD, MSc

Bianca Jorge

para mim

Oi Dr Bruno, obrigada pelo e-mail !!

O Uso é gratuito e não requer autorização, já está adaptado e pronto para o uso !!!

Parabéns pelo trabalho

Bianca

ANEXO D - KIDSCREEN-27 Child and Adolescent Version

1. Atividades Físicas e Saúde

1. De uma forma geral, como está sua saúde?

☐ excelente

☐ muito boa

☐ boa

☐ ruim

☐ muito ruim

Pensando sobre a semana passada...

	nada	pouco	moderada-mente	muito	totalmente
2. Você tem se sentido bem e disposto?	☐	☐	☐	☐	☒
3. Você tem praticado atividades físicas (por exemplo: correr, andar de bicicleta, escalar)?	☐	☐	☐	☐	☒
4. Você tem sido capaz de correr bem?	☐	☐	☐	☐	☒

Pensando sobre a semana passada...

	nunca	raramente	algumas vezes	frequente-mente	sempre
5. Você tem se sentido com energia?	☐	☐	☐	☐	☒

2. Sensações

	Pensando sobre a semana passada...				
	nada	pouco	moderada- mente	muito	totalmente
1. A sua vida tem sido agradável?	☐	☐	☐	☐	☐

	Pensando sobre a semana passada...				
	nunca	raramente	algumas vezes	frequente- mente	sempre
2. Você tem estado de bom humor?	☐	☐	☐	☐	☐
3. Você tem se divertido?	☐	☐	☐	☐	☐

3. Humor em geral

	Pensando sobre a semana passada...				
	nunca	raramente	algumas vezes	frequente- mente	sempre
4. Você tem se sentido triste?	☐	☐	☐	☐	☐
5. Você tem se sentido tão mal que não tem vontade de fazer nada?	☐	☐	☐	☐	☐
6. Você tem se sentido sozinho?	☐	☐	☐	☐	☐

4. Sobre você

	Pensando sobre a semana passada...				
	nunca	raramente	algumas vezes	frequente- mente	sempre
7. Você se sente feliz do jeito que você é?	☐	☐	☐	☐	☐

5. Tempo livre

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	algumas vezes	frequentemente	sempre
1.	Você tem tido tempo suficiente para você mesmo?	☐	☐	☐	☒	☐
2.	Você tem feito as coisas que quer no seu tempo livre?	☐	☐	☐	☒	☐

6. Família e vida em casa

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	algumas vezes	frequentemente	sempre
3.	Seus pais têm tempo suficiente para você?	☐	☐	☐	☒	☐
4.	Seus pais te tratam com justiça?	☐	☐	☐	☒	☐
5.	Seus pais estão disponíveis para falar quando você deseja?	☐	☐	☐	☒	☐

7. Dinheiro

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	algumas vezes	frequentemente	sempre
6.	Você tem tido dinheiro suficiente para fazer as mesmas coisas que seus amigos?	☐	☐	☐	☒	☐
7.	Você tem dinheiro suficiente para suas despesas?	☐	☐	☐	☒	☐

8. Amigos

Pensando sobre a semana passada...

	nunca	raramente	algumas vezes	frequentemente	sempre
1. Você tem passado tempo com seus amigos?	☐	☐	☐	☐	☐
2. Você se diverte com seus amigos?	☐	☐	☐	☐	☐
3. Você e seus amigos se ajudam?	☐	☐	☐	☐	☐
4. Você confia em seus amigos?	☐	☐	☐	☐	☐

9. Escola e Aprendizado

Pensando sobre a semana passada...

	nada	pouco	moderadamente	muito	totalmente
1. Você se sente feliz na escola?	☐	☐	☐	☐	☐
2. Você está indo bem na escola?	☐	☐	☐	☐	☐

Pensando sobre a semana passada...

	nunca	raramente	algumas vezes	frequentemente	sempre
3. Você tem se sentido capaz de prestar atenção na escola?	☐	☐	☐	☐	☐
4. Você se dá bem com os seus professores?	☐	☐	☐	☐	☐

ANEXO E - KIDSCREEN-27 Parent Version

1. Atividades físicas e saúde

Em geral, como o(a) seu/sua filho(a) avalia a saúde dele(a)? 1. ☐ excelente ☐ muito boa ☐ boa ☐ regular ☐ ruim						
Na		nada	pouco	moderada-mente	muito	extrema-mente
2.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu-se bem e em forma?	☐	☐	☐	☐	☐
3.	O(A) seu/sua filho(a) foi fisicamente ativo (correu, nadou, andou de bicicleta etc.)?	☐	☐	☐	☐	☐
4.	O(A) seu/sua filho(a) foi capaz de correr bem?	☐	☐	☐	☐	☐
Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
5.	O(A) seu/sua filho(a) se sentiu cheio de energia?	☐	☐	☐	☐	☐

2. Estado de humor e sentimentos do(a) seu/sua filho(a)

Pensando sobre a semana passada...		nada	pouco	moderada-mente	muito	extrema-mente
1.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu que a vida foi agradável?	☐	☐	☐	☐	☐
Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
2.	O(A) seu/sua filho(a) esteve de bom humor?	☐	☐	☐	☐	☐
3.	O(A) seu/sua filho(a) se divertiu?	☐	☐	☐	☐	☐

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
4.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu-se triste?	☐	☐	☐	☐	☐
5.	O(A) seu/sua filho(a) se sentiu tão mal que não quis fazer nada?	☐	☐	☐	☐	☐
6.	O(A) seu/sua filho(a) se sentiu sozinho(a)?	☐	☐	☐	☐	☐
7.	O(A) seu/sua filho(a) se sentiu feliz com seu próprio jeito de ser?	☐	☐	☐	☐	☐

3. Família e tempo livre

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
1.	O(A) seu/sua filho(a) teve tempo suficiente para si mesmo(a)?	☐	☐	☐	☐	☐
2.	O(A) seu/sua filho(a) foi capaz de fazer as coisas que ele/ela quer fazer no seu próprio tempo livre?	☐	☐	☐	☐	☐
3.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu que os pais tiveram tempo suficiente para ele(a)?	☐	☐	☐	☐	☐
4.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu que os pais o(a) trataram de forma justa?	☐	☐	☐	☐	☐
5.	O(A) seu/sua filho(a) foi capaz de conversar com os pais quando quis?	☐	☐	☐	☐	☐
6.	O(A) seu/sua filho(a) teve dinheiro suficiente para fazer as mesmas coisas que os amigos?	☐	☐	☐	☐	☐
7.	O(A) seu/sua filho(a) sentiu que teve dinheiro suficiente para as despesas dele(a)?	☐	☐	☐	☐	☐

4. Amigos

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
1.	O(A) seu/sua filho(a) esteve com amigos?	☐	☐	☐	☐	☐
2.	O(A) seu/sua filho(a) se divertiu com amigos?	☐	☐	☐	☐	☐
3.	O(A) seu/sua filho(a) e os amigos se ajudaram uns aos outros?	☐	☐	☐	☐	☐
4.	O(A) seu/sua filho(a) foi capaz de confiar nos amigos?	☐	☐	☐	☐	☐

5. Escola e aprendizagem

Pensando sobre a semana passada...		nada	pouco	moderadamente	muito	extremamente
1.	O(A) seu/sua filho(a) foi feliz na escola?	☐	☐	☐	☐	☐
2.	O(A) seu/sua filho(a) esteve bem na escola?	☐	☐	☐	☐	☐

Pensando sobre a semana passada...		nunca	raramente	frequentemente	muito frequentemente	sempre
3.	O(A) seu/sua filho(a) foi capaz de prestar atenção?	☐	☐	☐	☐	☐
4.	O(A) seu/sua filho(a) se relacionou bem com os professores?	☐	☐	☐	☐	☐

ANEXO F - Autorização dos autores para uso do KIDSCREEN-27

Office of Quality of Life Measures <QOL@uke.de>

para Christiane, mim, Ulrike

Dear Bruno Scofano,

Thank you for your interest in the KIDSCREEN instruments and your email to Prof. Dr. phil. Ulrike Ravens-Sieberer. I am a co-worker of Prof. Dr. phil. Ulrike Ravens-Sieberer, working in the coordination of the European KIDSCREEN project in Hamburg, Germany.

We have received your signed collaboration form and are very happy to collaborate with you. You are registered for the use of the KIDSCREEN Quality of Life questionnaires for children/adolescents and parents. As a collaboration partner of the KIDSCREEN group you are welcome to join the members' area (<http://www.kidscreen.org/english/members/>) of our project website www.kidscreen.org. There you can download the respective KIDSCREEN questionnaire version and other useful material (see "Members").

Your password is: kidscreen

For using the KIDSCREEN questionnaires we kindly advise you to work with the KIDSCREEN manual. The KIDSCREEN manual can be directly downloaded from our website <https://www.kidscreen.org/english/login/manual/> after having logged in. The manual describes all relevant user information, which are necessary for applying the KIDSCREEN questionnaires, e.g. psychometrics, norm data for group and individual comparisons, and instructions on how to score the instrument.

We are looking forward to collaborating with you and wish you all the best for your studies.

Please do not hesitate to contact us if further queries arise.

With best wishes,

Lina Graumann

Office of Quality of Life Measures in Children | Research Assistant

University Medical Center Hamburg-Eppendorf

Center for Psychosocial Medicine

Department of Child and Adolescent Psychiatry, Psychotherapy and Psychosomatics

Research Unit "Child Public Health"

Martinistraße 52, W 29

D - 20246 Hamburg

Tel.: +49 (040) 7410 58503

Fax: +49 (040) 7410 55105

Email: QOL@uke.de

Info: <http://www.child-public-health.org/english/>

Von: Bruno L. Sdías <brunoscofano91@gmail.com>

Datum: 20. Februar 2021 um 17:03:26 MEZ

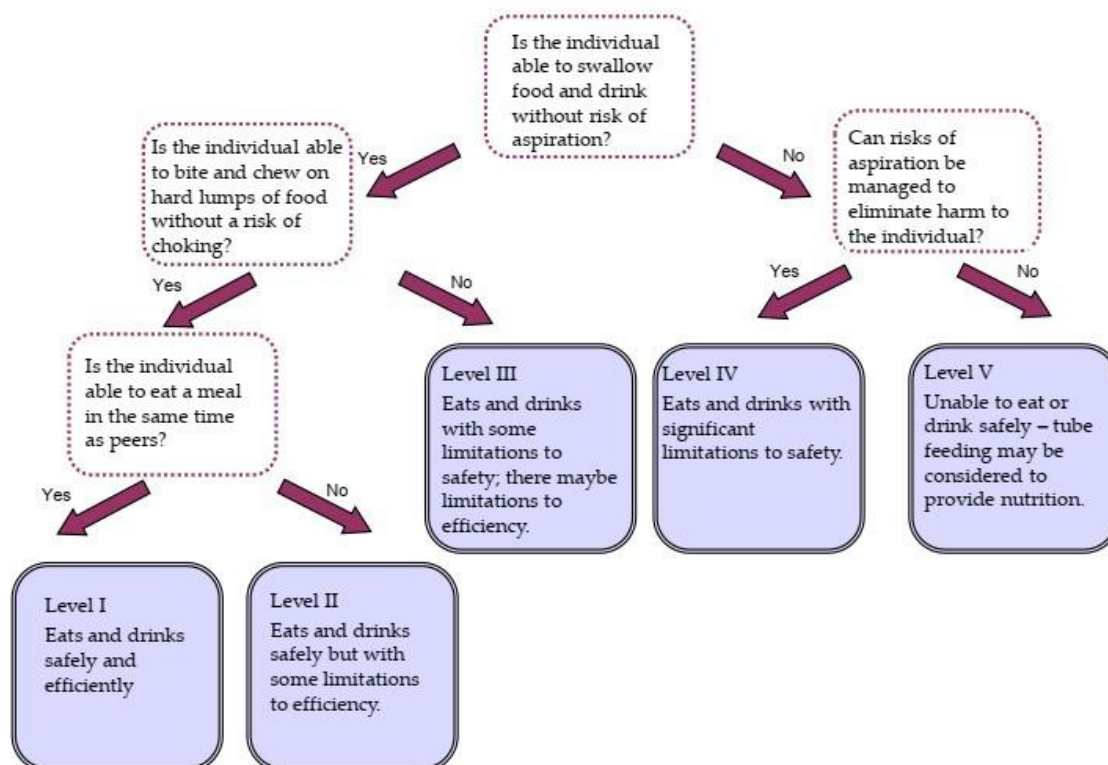
An: "Ravens-Sieberer, Ulrike" <ravens-sieberer@uke.de>

Betreff: Permission to use the KIDSCREEN-10

ANEXO G - Gross Motor Function Classification System**GMFCS I****GMFCS II****GMFCS III****GMFCS IV****GMFCS V**

ANEXO H - Eating and Drinking Ability Classification System

Eating and Drinking Ability Classification System - Algorithm



ANEXO I - Critérios de Hoffer

Grupo 1 - Deambuladores comunitários

Os pacientes deambulam dentro e fora de casa para a maioria de suas atividades, podendo necessitar do auxílio de órteses ou muletas, ou ambos. Usam cadeira de rodas para o deslocamento de longas distâncias ou viagens fora da comunidade.

Distância percorrida de deambulação – 610 metros.

Grupo 2 - Deambuladores domiciliares

Os pacientes deambulam somente dentro de casa e com órteses. São capazes de subir e sair da cadeira de rodas e da cama com pequena ou nenhuma ajuda. Em geral são independentes nas atividades de vida diária (AVD), praticamente sem nenhuma assistência. Usam cadeira de rodas para algumas atividades dentro de casa e na escola e para todas as atividades na comunidade.

Distância percorrida – 30 metros.

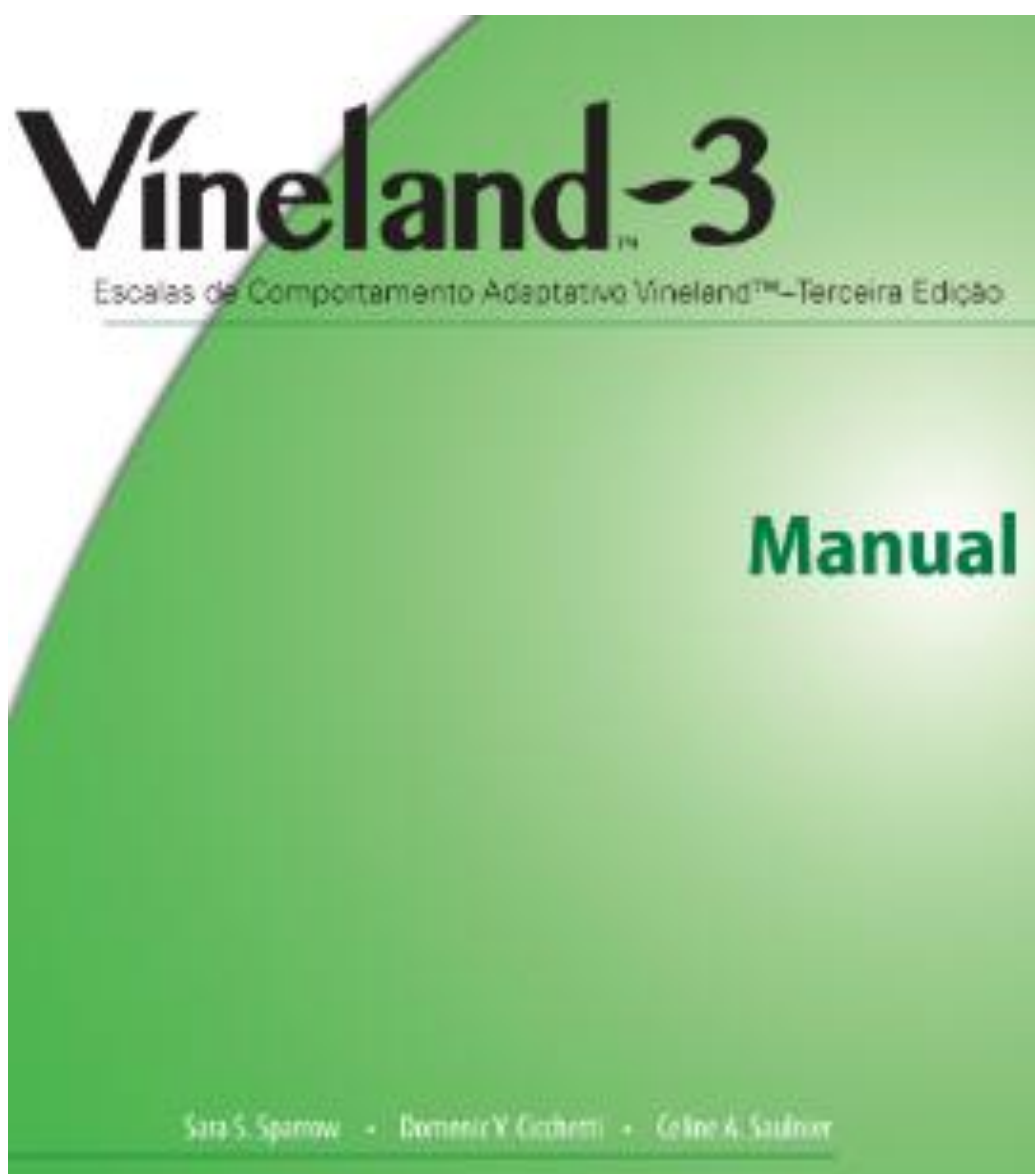
Grupo 3 - Deambuladores não funcionais

Os pacientes deambulam durante a sessão de terapia em casa, na escola, ou no hospital. A deambulação para estes pacientes é usada somente como terapia. Usam cadeira de rodas como meio de transporte para qualquer outra atividade.

Distância percorrida - menor que 3 metros.

Grupo 4 - Não deambuladores

Os pacientes só se movimentam através da cadeira de rodas, e usualmente podem fazer a transferência da cadeira de rodas para a cama.

ANEXO J - Vineland Adaptive Behavior Scales

ANEXO K - Critério Brasil da Associação Brasileira de Empresas de Pesquisa

SISTEMA DE PONTOS

Variáveis

	Quantidade				
	0	1	2	3	4 ou +
Banheiros	0	3	7	10	14
Empregados domésticos	0	3	7	10	13
Automóveis	0	3	5	8	11
Microcomputador	0	3	6	8	11
Lava louça	0	3	6	6	6
Geladeira	0	2	3	5	5
Freezer	0	2	4	6	6
Lava roupa	0	2	4	6	6
DVD	0	1	3	4	6
Micro-ondas	0	2	4	4	4
Motocicleta	0	1	3	3	3
Secadora roupa	0	2	2	2	2

Grau de instrução do chefe de família e acesso a serviços públicos

Grau de instrução do chefe da família	
Analfabeto / Fundamental I incompleto	0
Fundamental I completo / Fundamental II incompleto	1
Fundamental II completo / Médio incompleto	2
Médio completo / Superior incompleto	4
Superior completo	7
Serviços públicos	
	Não
	Sim
Água encanada	0
Rua pavimentada	0
	2

Cortes do Critério Brasil

Classe	Pontos
1 - A	45 - 100
2 - B1	38 - 44
3 - B2	29 - 37
4 - C1	23 - 28
5 - C2	17 - 22
6 - D - E	0 - 16

ANEXO L - Aprovação pelo Comitê de Ética em Pesquisa da Rede SARAH de Hospitais de Reabilitação

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



PARECER CONSUBSTANCIADO DO CEP

DADOS DO PROJETO DE PESQUISA

Título da Pesquisa: QUALIDADE DE VIDA DAS FAMÍLIAS E DOS IRMÃOS DE CRIANÇAS E ADOLESCENTES COM PARALISIA CEREBRAL E COM MIELOMENINGOCELE

Pesquisador: Bruno Leonardo Scofano Dias

Área Temática:

Versão: 2

CAAE: 50381121.1.0000.0022

Instituição Proponente: ASSOCIACAO DAS PIONEIRAS SOCIAIS

Patrocinador Principal: Financiamento Próprio

DADOS DO PARECER

Número do Parecer: 5.031.824

Apresentação do Projeto:

A paralisia cerebral é a deficiência física mais comum da infância. A mielomeningocele é uma das malformações congênitas mais comuns. Ambas, além da deficiência física, podem também levar a comorbidades como transtornos clínicos, neurológicos, ortopédicos, sensoriais, e do neurodesenvolvimento.

A Classificação Internacional de Funcionalidade, Incapacidade e Saúde destaca a importância de avaliar as consequências funcionais de todos os estados de saúde. Tanto na paralisia cerebral quanto na mielomeningocele, as deficiências físicas, as consequências funcionais e as comorbidades impactam na qualidade de vida das crianças, da família e dos irmãos.

Estudo transversal, descritivo e analítico. Serão avaliadas as famílias e os irmãos e/ou irmãs saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) de crianças/adolescentes com diagnóstico de PC e de MMC consecutivamente atendidos no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências e serão avaliados irmãos e/ou irmãs saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) de crianças/adolescentes saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) que são filhos(as) de funcionários do Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências. Para os pacientes consecutivamente acompanhados que cumpriram os critérios de inclusão, as famílias serão submetidas ao TCLE e posteriormente a Burden Interview e a Family Quality of Life Scale e os irmãos dos pacientes serão submetidos ao

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar

Bairro: SMHS

CEP: 70.334-900

UF: DF

Município: BRASILIA

Telefone: (61)3319-1494

E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

TALE e posteriormente a KIDSCREEN-10, seus dados serão anotados na ficha de coleta de dados. Para as famílias de funcionários que cumprirem os critérios de inclusão, as famílias serão submetidas ao TCLE e os irmãos de crianças saudáveis serão submetidos ao TALE e a KIDSCREEN-10, seus dados serão anotados na ficha de coleta de dados.

Objetivo da Pesquisa:

Caracterizar a qualidade de vida familiar e dos irmãos de crianças e adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele e correlacioná-las com variáveis sociodemográficas, funcionais, neurodesenvolvimentais, clínicas, da sobrecarga no cuidador.

Avaliação dos Riscos e Benefícios:

RISCOS

Segundo o autor, não será necessária nenhuma alteração na rotina dos atendimentos ao longo do acompanhamento ou exame específico para fins de pesquisa. O paciente não terá nenhum gasto e também não receberá nenhum pagamento por participar desse estudo. As informações obtidas nesse estudo serão confidenciais, sendo assegurado o sigilo sobre a participação do paciente, quando da apresentação dos resultados em publicação científica ou educativa, uma vez que os resultados serão sempre apresentados como retrato de um grupo e não de uma pessoa.

BENEFÍCIOS

Os resultados dessa pesquisa servirão para aumentar o conhecimento sobre a qualidade de vida das famílias e dos irmãos de crianças/adolescentes com paralisia cerebral e com mielomeningocele. O benefício principal da participação do menor sobre a sua responsabilidade é possibilitar que no futuro, com os resultados alcançados com esta pesquisa, os pacientes, suas famílias e seus irmãos sejam beneficiados.

Comentários e Considerações sobre a Pesquisa:

Serão avaliadas as famílias e os irmãos e/ou irmãs saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) de crianças/adolescentes com diagnóstico de PC e de MMC consecutivamente atendidos no Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências e serão avaliados irmãos e/ou irmãs saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) de crianças/adolescentes saudáveis (sem nenhum tipo de doença crônica ou deficiência) que são filhos(as) de funcionários do Centro Internacional SARAH de Neuroreabilitação e Neurociências.

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar

Bairro: SMHS

CEP: 70.334-900

UF: DF

Município: BRASILIA

Telefone: (61)3319-1494

E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

Considerações sobre os Termos de apresentação obrigatória:

Serão aplicados TCLE e TALE, ambos termos em conformidade com a Res. 466/12.

Os instrumentos de pesquisa foram anexados ao projeto.

Cronograma e orçamento estão em conformidade.

OBSERVAÇÃO:

FOLHA DE ROSTO: a assinatura no campo "Instituição Proponente" será coletada ao final da análise ética, em virtude do fluxo institucional interno para análise de projetos de pesquisa. O CEP – APS orientará ao pesquisador responsável a postagem do documento assinado como notificação administrativa. Vide declaração em documento anexo ("decl1").

Recomendações:

No trecho abaixo, referente aos riscos, recomendamos reescrever a última linha, conforme sugestão:

Uma vez os irmãos saudáveis serão indagados sobre a sua qualidade de vida, com a hipótese de que esta seria afetada pela atenção requerida pelo irmão com deficiência, há que se considerar a possibilidade de um eventual impacto psicológico nessa criança. Contudo, a criança e a família receberão todo o suporte, oportunizando que a criança expresse seus sentimentos e receba os cuidados pertinentes.

Conclusões ou Pendências e Lista de Inadequações:

Análise das respostas às pendências do parecer número 4.894.759

Pendência nº 01

Revisar toda a ficha de informações básicas do projeto, trazendo as informações de forma resumida e objetiva.

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar

Bairro: SMHS

CEP: 70.334-900

UF: DF

Município: BRASILIA

Telefone: (61)3319-1494

E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

Resposta

A ficha de informações básicas do projeto foi revisada e ajustada na Plataforma Brasil.

Análise: PENDÊNCIA ATENDIDA

Pendência nº 02

Descrever como se dará a participação da família dos pacientes, em especial a participação dos irmãos. Descrever ainda em que momento serão coletados os dados dos instrumentos que serão aplicados junto aos pacientes e seus familiares.

Resposta

Foi introduzido no projeto detalhado o item 4.2.3.

Análise: PENDÊNCIA ATENDIDA

Pendência nº 03

Identificar quais dos testes fazem parte da rotina de atendimento e, conseqüentemente não onerarão o tempo de consulta, destacando quais protocolos são adicionais, trazendo para o projeto e para os participantes de pesquisa uma estimativa de tempo para aplicação desses protocolos.

Resposta

Também introduzido no projeto detalhado no item 4.2.3.

Análise: PENDÊNCIA ATENDIDA

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar
Bairro: SMHS CEP: 70.334-900
UF: DF Município: BRASILIA
Telefone: (61)3319-1494 E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

**ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH**



Continuação do Parecer: 5.031.824

Pendência nº 04

Incluir no projeto detalhado e no TCLE o risco de quebra de sigilo, assim como foi feito no TALE. Incluir ainda, como risco, o eventual desconforto causado pelo maior tempo de permanência no ambiente hospitalar, bem como o deslocamento dos familiares até o hospital para fins exclusivos de pesquisa.

Resposta

Incluídos no projeto detalhado (no item 6. Riscos) e no TCLE o risco de quebra de sigilo destacado em vermelho.

Incluídos no projeto detalhado (no item 6. Riscos) e no TCLE o eventual desconforto causado pelo maior tempo de permanência no ambiente hospitalar. Não foi incluído o deslocamento dos familiares até o hospital para fins exclusivos de pesquisa pois todo o contato com os pesquisadores será realizado em atendimentos já previamente programados pelo programa de reabilitação.

Análise: PENDÊNCIA ATENDIDA

Pendência nº 05

Excluir do TALE a afirmação "Seus pais permitiram que você participe".

Resposta

Excluído do TALE a afirmação "Seus pais permitiram que você participe".

Análise: PENDÊNCIA ATENDIDA

ORIENTAÇÕES DO CEP – APS PARA CONDUÇÃO E ACOMPANHAMENTO DA PESQUISA

Tendo em vista a legislação vigente (Resolução CNS 466/12), o CEP-APS recomenda aos

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar

Bairro: SMHS

CEP: 70.334-900

UF: DF

Município: BRASILIA

Telefone: (61)3319-1494

E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

Pesquisadores:

1. NOTIFICAR INÍCIO DA PESQUISA por meio de notificação administrativa na Plataforma Brasil;
2. NOTIFICAR INTERRUPÇÃO DO ESTUDO na Plataforma Brasil;
3. NOTIFICAR IMEDIATAMENTE EFEITO ADVERSO relacionados à pesquisa, via notificação na Plataforma Brasil e via documental ao CEP - APS.
4. Comunicar toda e qualquer alteração do projeto e do termo de consentimento via emenda na Plataforma Brasil;
3. Apresentar na forma de notificação relatórios parciais do andamento do projeto a cada 06 (seis) meses e ao término da pesquisa encaminhar a este Comitê um sumário dos resultados do projeto (relatório final), via Plataforma Brasil;
4. Realizar a guarda do material de pesquisa (dados, TCLE, formulário, questionário, entrevistas) por 05 anos após o término da mesma;
5. NOTIFICAR O TÉRMINO DA PESQUISA via notificação administrativa na Plataforma Brasil.

MODELO DE RELATÓRIO FINAL

A) DADOS DO PROJETO

1. CAAE:
2. Pesquisador Responsável:

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar
 Bairro: SMHS CEP: 70.334-900
 UF: DF Município: BRASILIA
 Telefone: (61)3319-1494 E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

3. Pesquisadores Assistentes (orientador (a): se houver

4. Título do projeto:

B) DADOS DOS PARTICIPANTES DA PESQUISA

1. Total de sujeitos recrutados em cada local e no total:

2. Total de sujeitos incluídos no estudo em cada local e no total:

3. Total de sujeitos retirados/descontinuados em cada local e no total:

4. Principais razões de retirada/descontinuação:

5. Total de sujeitos que concluíram o estudo em cada local e no total:

6. Total de eventos sérios ocorridos em cada local e no total:

7. Condutas adotadas em relação aos eventos adversos graves:

8. Houve pedido de indenização por danos causados por este estudo por algum dos participantes?
(Se sim, favor descrever a ocorrência, ressaltando o motivo que a impulsionou e a conduta tomada.)

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar

Bairro: SMHS

CEP: 70.334-900

UF: DF

Município: BRASILIA

Telefone: (61)3319-1494

E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

C) RESULTADOS OBTIDOS

(Descreva resumidamente os resultados e os benefícios resultantes da pesquisa. Se necessário, anexar tabelas, quadros, figuras ou gráficos, para melhor entendimento dos resultados obtidos.)

D) DIVULGAÇÃO DOS RESULTADOS

Ocorreu a divulgação dos resultados para a Instituição na qual os dados foram coletados?

- () Sim. Qual a forma?
() Não. Especificar o motivo:

A pesquisa gerou apresentação de trabalhos? Publicações?

- () Sim. Qual a forma?
() Não. Especificar o motivo:

E) Ocorreu a divulgação dos resultados para a Instituição no qual os dados foram coletados?

E) DIFICULDADES ENCONTRADAS

(Relatar as dificuldades encontradas na condução da pesquisa.)

F) SUGESTÕES

Apontar sugestões de medidas que poderiam ser adotadas no âmbito da Instituição, com vistas a dinamizar as atividades de pesquisa e as atividades do Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos da Associação das Pioneiras Sociais.

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar
Bairro: SMHS CEP: 70.334-900
UF: DF Município: BRASILIA
Telefone: (61)3319-1494 E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS SOCIAIS-DF/ REDE SARAH



Continuação do Parecer: 5.031.824

Cidade (Estado) _____ de _____ de 20____.

Assinatura do Pesquisador Responsável

Considerações Finais a critério do CEP:

Este parecer foi elaborado baseado nos documentos abaixo relacionados:

Tipo Documento	Arquivo	Postagem	Autor	Situação
Outros	Cartarespostapendencias.odt	18/08/2021 10:32:34	Maria do Carmo Feitosa dos Santos	Aceito
Informações Básicas do Projeto	PB_INFORMAÇÕES_BASICAS_DO_P ROJETO_1802290.pdf	13/08/2021 15:34:00		Aceito
TCLE / Termos de Assentimento / Justificativa de Ausência	TALE_modificado.pdf	13/08/2021 15:33:19	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
TCLE / Termos de Assentimento / Justificativa de Ausência	TCLE_modificado.pdf	13/08/2021 15:33:07	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Outros	Cartarespostapendencias.pdf	13/08/2021 15:32:21	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Projeto Detalhado / Brochura Investigador	Projeto_Plataforma_Brasil_modificado.p df	13/08/2021 15:31:48	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Folha de Rosto	Folha_de_rosto_preenchida.pdf	02/08/2021	Bruno Leonardo	Aceito

Endereço: SMHS Quadra 301 Bloco B nº 45 Entrada A Edifício Pioneiras Sociais - Terceiro Andar
Bairro: SMHS CEP: 70.334-900
UF: DF Município: BRASILIA
Telefone: (61)3319-1494 E-mail: comiteeticapesquisa@sarah.br

**ASSOCIAÇÃO DAS PIONEIRAS
SOCIAIS-DF/ REDE SARAH**



Continuação do Parecer: 5.031.824

Folha de Rosto	Folha_de_rosto_preenchida.pdf	15:38:27	Scofano Dias	Aceito
Outros	KIDSCREEN_10_parent_version.odt	02/08/2021 11:37:56	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Outros	KIDSCREEN_10_child_and_adolescent version.odt	02/08/2021 11:36:07	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Outros	Family_Quality_of_Life_Scale.pdf	02/08/2021 11:31:09	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito
Outros	Burden_Interview.pdf	02/08/2021 11:30:04	Bruno Leonardo Scofano Dias	Aceito

Situação do Parecer:

Aprovado

Necessita Apreciação da CONEP:

Não

BRASILIA, 11 de Outubro de 2021

**Assinado por:
Valéria Baldassin
(Coordenador(a))**