

Perceções parentais sobre a prática da investigação em crianças com anomalias congénitas ou paralisia cerebral: entre o que preocupa as famílias e a prática

Parental perceptions of research agenda in children with congenital anomalies or cerebral palsy: between families concerns and research practice

Ana João Santos, Paula Braz, Ausenda Machado, Teresa Folha, Carlos Matias Dias

ana.carvalho@insa.min-saude.pt

Departamento de Epidemiologia, Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, Lisboa, Portugal

Resumo

As anomalias congénitas (AC) e a paralisia cerebral (PC) são importantes causas de mortalidade e morbilidade infantil, bem como de incapacidade a longo prazo. A participação das famílias e cuidadores de crianças com estas condições na investigação e no estabelecimento das suas prioridades pode ser importante para revelar questões e aspetos não considerados. No âmbito do projeto EUROlinkCAT que pretendeu, entre outros objetivos, promover a participação das famílias na partilha e disseminação de prioridades de investigação, apresentam-se os resultados de um estudo sobre os aspetos que mais preocupam os pais e a perceção destes relativamente à agenda de investigação. O estudo descritivo, transversal, foi realizado com uma amostra de conveniência de pais de crianças diagnosticadas com uma AC, incluída num de quatro grandes grupos (anomalias cardíacas graves, espinha bifida, fendas orofaciais e síndrome de Down) e, ou, com PC. Foi construído um questionário online, semiestruturado, acessível através de uma hiperligação, destinado a ser respondido pelos pais de crianças com AC e, ou, PC. A hiperligação foi enviada aos pontos focais de cinco associações portuguesas, que a disseminaram junto dos seus associados. Apresenta-se uma análise descritiva para um conjunto de perguntas fechadas. As famílias de crianças com uma das AC estudadas ou com PC preocupavam-se, sobretudo, com os aspetos sociais e com o desenvolvimento global das crianças. Consideraram que a investigação se centra em aspetos da saúde e não tanto na qualidade de vida ou no desenvolvimento social das crianças e que não há uma interação com as famílias.

Abstract

Congenital Anomalies (CA) and Cerebral Palsy (CP) are important causes of infant mortality and morbidity, as well as long-term disability. The participation of families and caregivers of children with these conditions in research and the definition of research priorities can be essential to point out not considered issues. The study is developed, partly, within the scope of the EUROlinkCAT project, which also aimed to promote a reciprocal relationship between families and researchers. The study focused on aspects that most concern parents over their children conditions and their perception concerning the research agenda. The cross-sectional descriptive study was conducted with a convenience sample of parents of children diagnosed with four groups of CA (severe heart anomalies; spina bifida; orofacial clefts and Down syndrome) and/or CP. A semi-structured online

questionnaire to be answered by parents was sent by web link to focal points of five Portuguese associations. Descriptive analysis is presented for the closed-ended questions. Families of children with one of the included CA or with CP were mainly concerned with the social aspects and global development of their children. They perceived no interaction between research and families and believed research focused almost solely on health and not as much on quality of life or social development.

Introdução

As anomalias congénitas (AC) e paralisia cerebral (PC) são importantes causas de mortalidade e morbilidade infantil, bem como de incapacidade a longo prazo (1,2).

O projeto EUROlinkCAT (*Establishing a linked European Cohort of Children with Congenital Anomalies*), foi desenvolvido por 21 registos de anomalias congénitas de base populacional, situados em 13 países europeus, tendo sido utilizada a metodologia e os critérios de qualidade do *European Surveillance of Congenital Anomalies* (EUROCAT). Entre outros objetivos, pretendia promover a interação entre as famílias e os profissionais na partilha e disseminação de prioridades relevantes de pesquisa e os resultados da mesma, com foco em algumas anomalias congénitas específicas (3). O presente estudo decorre da implementação do EUROlinkCAT em Portugal e teve como objetivo identificar a perceção de pais e cuidadores sobre o papel da investigação e interação com a comunidade científica, em relação aos aspetos que preocupam as famílias. A investigação, que não se foque necessariamente nas famílias, não tem como prática comum incluir as



mesmas no desenvolvimento dos estudos, contudo as famílias têm um amplo conhecimento das condições das crianças de quem cuidam, bem como dos desafios que decorrem da sua vida quotidiana (4,5). Um estudo anterior sobre o envolvimento dos pais na investigação em saúde identificou, entre as questões indicadas pelos pais, aspetos de que os investigadores não estavam cientes ou que não eram valorizados (5,6).

_Objetivos

O objetivo do estudo foi descrever a perceção de pais e cuidadores de crianças com anomalias cardíacas graves, espinha bífida, fenda lábio-palatina, síndrome de Down ou paralisia cerebral, sobre a investigação e o seu impacto no dia-a-dia das crianças e das suas famílias, em relação aos aspetos que mais preocupam os pais.

_Métodos

O estudo descritivo, transversal, foi realizado com uma amostra de conveniência de pais de crianças diagnosticadas com quatro grupos de AC (anomalias cardíacas graves, espinha bífida, fenda lábio-palatina, síndrome de Down) ou com PC.

Um questionário *online*, semiestruturado, foi enviado por meio de uma hiperligação para os pontos focais de associações de pais e instituições profissionais em Portugal (Pais21 – Down Portugal; Associação Spina Bífida e Hidrocefalia de Portugal; Associação Coração Feliz; Associação Portuguesa dos Amigos das Crianças Portadoras de Fendas Lábio-Palatinas; a Federação das Associações Portuguesas de Paralisia Cerebral e o Centro de Reabilitação de Paralisia Cerebral Calouste Gulbenkian). Entre 5 e 27 de maio de 2018, o questionário foi disseminado pelos pontos focais junto das famílias.

No questionário incluiu-se: a) um conjunto de quatro itens que avaliaram, numa escala de 5 pontos do tipo Likert, o grau de preocupação dos pais e cuidadores sobre os diferentes aspetos do crescimento e desenvolvimento das crianças; b) um conjunto de

oito itens, avaliados numa escala do tipo Likert, que possibilitaram avaliar a perceção de pais e cuidadores sobre a inclusão de aspetos, para si considerados importantes na prática da investigação pela comunidade científica (escala de 4 pontos, “completamente” a “de forma alguma”).

_Resultados

Ao todo, foram recebidos 254 questionários, dos quais 153 (60%) tinham preenchido as subsecções consideradas. A maioria dos respondentes eram mulheres (89%), entre os 34 e os 54 anos (77%), casados ou em união de facto (79%) e com o 12º ano de escolaridade (66%).

Mais de metade dos pais (>60%) mostrou um grau de preocupação elevado com todos os aspetos questionados, mas foram os aspetos sociais (75,5%) e aqueles relacionados com o desenvolvimento global da criança (73,5%), os que foram mais frequentemente considerados como “mais preocupantes” (**gráfico 1**).

O **gráfico 2** apresenta os vários itens relacionados com a perceção de regularidade na prática da investigação de aspetos que as famílias consideraram importantes. Para a maioria dos respondentes, a investigação centra-se sobretudo em questões de saúde (84,4%). Ainda assim, quase metade considerava que parte da investigação se centra no desenvolvimento social (47%) e na qualidade de vida (47,5%).

Para 43,2% dos respondentes, as experiências das famílias são tidas em conta na investigação, ainda que para cerca de um terço não existisse uma comunicação entre a investigação e as famílias: não existindo incentivo por parte dos investigadores na participação ativa dos pais (62,1%); não se observando a transmissão da informação do que vai sendo investigado (62,6%) ou a comunicação dos resultados de investigação às famílias (66,9%).



Gráfico 1 ▾ Distribuição das frequências quanto ao grau de preocupação (muita e pouca) de pais e cuidadores, do impacto da anomalia congénita ou paralisia cerebral nos aspetos sociais, de desenvolvimento global, nos cuidados de saúde imediatos ou a longo prazo (n=153).

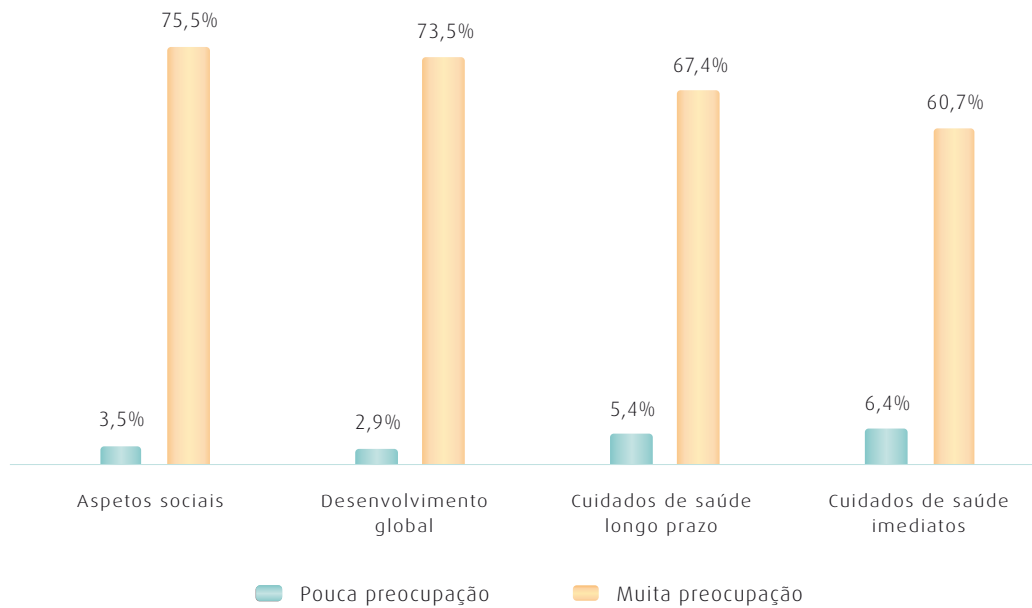
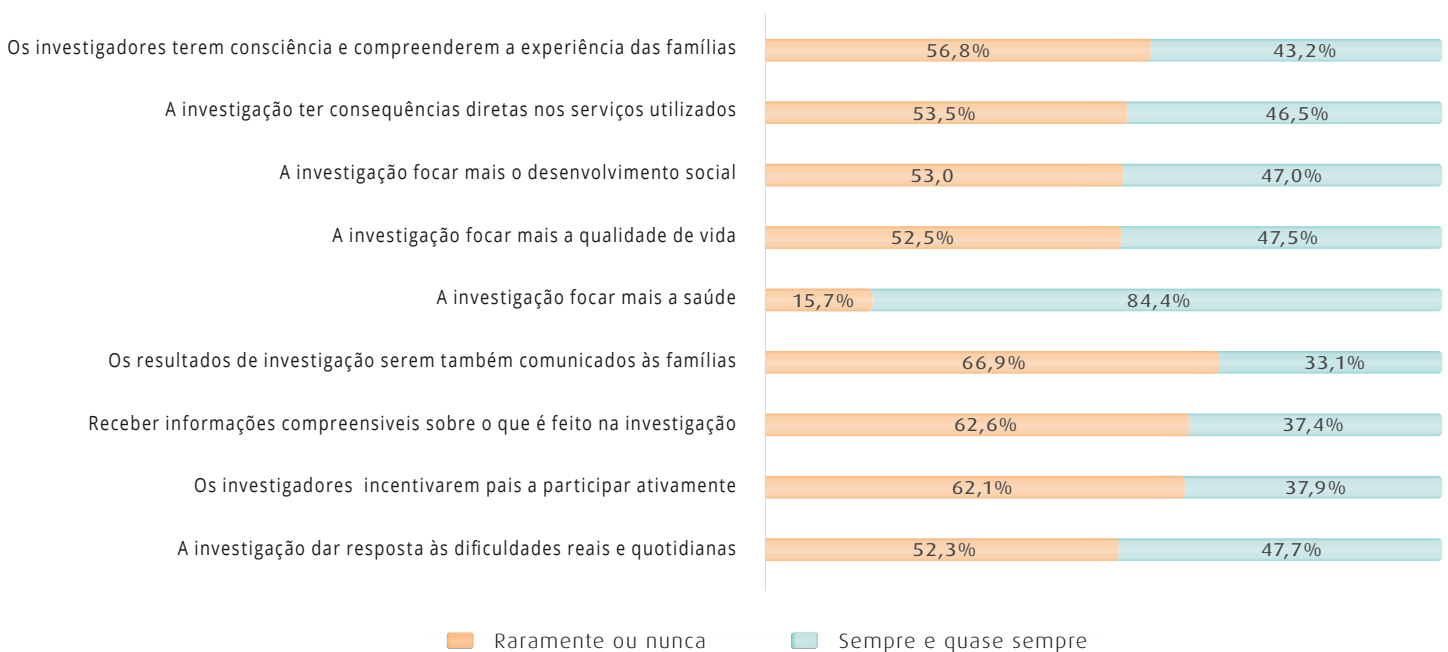


Gráfico 2 ▾ Distribuição da frequência de pais e cuidadores quanto à regularidade na prática da investigação da comunidade científica de aspetos que consideraram importantes, na área das anomalias congénitas e paralisia cerebral (n=153).





_ Conclusão

De modo geral, as famílias de crianças com anomalias cardíacas graves, espinha bífida, fenda lábio-palatina, síndrome de Down ou com paralisia cerebral (PC) preocupavam-se, sobretudo, com os aspetos sociais e o desenvolvimento global das crianças. Este resultado pode significar que as questões de saúde, no momento de resposta ao questionário, se encontravam relativamente acuteladas. Por outro lado, estes são aspetos que outros estudos têm também identificado como sendo relevantes – cuidadores tendem a valorizar a informação sobre o desenvolvimento global e a integração social, posicionando-se numa perspetiva mais global (5,7), ainda que a manutenção de um “bom estado de saúde” também seja reconhecido (6).

Os resultados indicam ainda que, para os respondentes e apesar da importância da investigação noutras áreas, a temática da investigação se centraria sobretudo em questões de saúde e não tanto na qualidade de vida ou no desenvolvimento social. Para mais de metade dos respondentes, há a perceção de que a comunidade científica e a investigação na área das anomalias congénitas (AC) e da PC, é algo que decorre à parte das famílias.

Os estudos tendem a indicar alguma incongruência entre as prioridades de investigação da comunidade científica e as respostas que as famílias sentem ser necessárias para melhorar a qualidade de vida, globalmente (4,6). Antecipando a dificuldade de definir uma agenda de investigação apenas nas necessidades sentidas pelos cuidadores, não deixa de ser necessário repensar o contributo daqueles que beneficiam dos resultados de investigação.

Agradecimento:

A todos os participantes que responderam ao questionário e partilharam, assim, um pouco da história das suas famílias.

Financiamento:

Parte deste trabalho foi desenvolvido no âmbito do projeto EUROLINKCAT – Estabelecendo uma coorte europeia de Crianças com Anomalias Congénitas, financiado pelo programa de financiamento de investigação e inovação, Horizonte 2020 (ref.^a n.º 733001).

Referências bibliográficas:

- (1) Dolk H, Loane M, Garne E. The prevalence of congenital anomalies in Europe. *Adv Exp Med Biol.* 2010;686:349-64. https://doi.org/10.1007/978-90-481-9485-8_20
- (2) World Health Organization. Congenital Anomalies [online]. [consult. 24/10/2022]. https://www.who.int/health-topics/congenital-anomalies#tab=tab_1
- (3) Morris JK, Garne E, Loane M, et al.; EUROLINKCAT Consortium. EUROLINKCAT protocol for a European population-based data linkage study investigating the survival, morbidity and education of children with congenital anomalies. *BMJ Open.* 2021 Jun 28;11(6):e047859. <https://doi.org/10.1136/bmjopen-2020-047859>
- (4) Holm KG, Neville AJ, Pierini A, et al. The Voice of Parents of Children With a Congenital Anomaly - A EUROLINKCAT Study. *Front Pediatr.* 2021 Nov 29;9:654883. <https://doi.org/10.3389/fped.2021.654883>
- (5) Marceau LD, Welch LC, Pemberton VL, et al. Educating Parents About Pediatric Research: Children and Clinical Studies Website Qualitative Evaluation. *Qual Health Res.* 2016 Jul;26(8):1114-22. Epub 2015 Dec 28. <https://doi.org/10.1177/1049732315616620>.
- (6) Sinclair M, McCullough JE, Elliott D, et al. Exploring Research Priorities of Parents Who Have Children With Down Syndrome, Cleft Lip With or Without Cleft Palate, Congenital Heart Defects, or Spina Bifida Using ConnectEpeople: A Social Media Coproduction Research Study. *J Med Internet Res.* 2019 Nov 25;21(11):e15847. <https://doi.org/10.2196/15847>
- (7) Kuhlthau KA, Bloom S, Van Cleave J, et al. Evidence for family-centered care for children with special health care needs: a systematic review. *Acad Pediatr.* 2011 Mar-Apr;11(2):136-43. <https://doi.org/10.1016/j.acap.2010.12.014>