



UC/FPCE_2018

Universidade de Coimbra
Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação

Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões portuguesas dos questionários QoLISSY

Sara Costa da Silva Vallejo (e-mail: s_csv@hotmail.com)

Dissertação de Mestrado em Psicologia Clínica e da Saúde, Subárea de especialização em Intervenções Cognitivo-Comportamentais nas Perturbações Psicológicas e Saúde, sob a orientação da Professora Doutora Maria Cristina Canavarro e da Doutora Neuza Maria Bernardino da Silva

Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões portuguesas dos questionários QoLISSY

Resumo

O presente estudo tem como principal objetivo explorar as propriedades psicométricas das versões portuguesas de auto e hetero-relato dos questionários QoLISSY num estudo-piloto, contribuindo para a validação de um instrumento de avaliação da Qualidade de Vida relacionada com a Saúde (QdVrS) pediátrica em Portugal. O protocolo de avaliação, constituído por uma ficha de dados clínicos e sociodemográficos, pelos questionários QoLISSY e pelos instrumentos de avaliação adicionais - KIDSCREEN-10 (QdVrS genérica), DISABKIDS-10 (QdVrS para condições crónicas de saúde) e SDQ (problemas de internalização e externalização), foi administrado a um grupo de crianças e adolescentes com baixa estatura (défice de hormona de crescimento ou baixa estatura idiopática), entre 8 e 18 anos, e pais de crianças entre 4 e 18 anos de idade. Os resultados do nosso estudo sugerem boas propriedades psicométricas, com valores de consistência interna entre .70 e .90 para a versão de auto-relato, e entre .69 e .95 para a versão de hetero-relato. As correlações entre os vários domínios mostraram ser moderadas a fortes, com exceção dos domínios coping e tratamento. As crianças com défice de hormona de crescimento reportaram pior QdVrS (domínio emocional e QdVrS total) em comparação às crianças com baixa estatura idiopática, os pais de raparigas reportaram uma melhor QdVrS (domínio futuro) em relação aos pais de rapazes, e uma melhor QdVrS (domínio emocional e QdVrS total) para os seus filhos que atingiram estatura normal, em comparação aos pais de crianças com baixa estatura atual. As comparações entre os grupos com e sem tratamento não demonstraram diferenças significativas e a concordância entre os auto e hetero-relatos foi fraca. Em suma, estes resultados vêm contribuir para a validação portuguesa do instrumento QoLISSY, possibilitando utilizar os questionários para identificar e avaliar o impacto psicossocial da condição de baixa estatura em crianças e adolescentes em Portugal.

Palavras-chave: Crianças e adolescentes; Baixa estatura; Questionários QoLISSY; Qualidade de vida; Qualidade de vida relacionada com a Saúde.

**Quality of life of children and adolescents with short stature:
Pilot study of the Portuguese versions of the QoLISSY questionnaires**

Abstract

The present study aimed at exploring the psychometric properties of the Portuguese versions of the self- and parent-reports of the QoLISSY questionnaires, through a pilot study, that will contribute to the validation of an instrument to assess the pediatric health related quality of life (HrQoL) in Portugal. The evaluation protocol was composed by a clinical and sociodemographic datasheet, the QoLISSY questionnaires, and additional instruments including the KIDSCREEN-10 (generic HrQoL), the DISABKIDS-10 (chronic-generic HrQoL) and SDQ (internalizing and externalizing problems). The protocol was completed by children and adolescents between 8 and 18 years of age with short stature (growth hormone deficiency or idiopathic short stature), as well as by parents of 4-18 year-old children. The results of our study suggest good psychometric properties, with internal consistency values of between .70 and .90 for self-reports and values between .69 and .95 for parent-reports. The correlations between the different domains were moderate to strong, except with the coping and treatment domains. Children with growth hormone deficiency reported lower HrQoL (emotional domain and total HrQoL), when compared with children with idiopathic short stature. The parents of female children reported better HrQoL (future domain), when compared with parents of male children, and also reported a better HrQoL (emotional domain and total HrQoL) for their children who reached normal stature when compared to the parents of children with current short stature. Differences between groups of children/adolescents with and without treatment were non-significant and the parent-child agreement was weak. In summary, these results contribute to the Portuguese validation of the QoLISSY instrument, allowing its application in clinical and research contexts to identify and assess the psychosocial impact of short stature in Portuguese children and adolescents.

Key-words: Children and adolescents; Short stature; QoLISSY questionnaires; Quality of life; Health-related quality of life.

Agradecimentos

À Professora Doutora Maria Cristina Canavarro, pelo apoio e pela oportunidade.

À Doutora Neuza Maria Bernardino da Silva, pela enorme disponibilidade e incansável apoio, pela orientação tão dedicada e cuidadosa. Pela exigência e rigor, pela motivação e por todos os conselhos.

Às pessoas que me acompanharam, pela disponibilidade e esclarecimentos.

Aos meus pais, pelo apoio incondicional, pela preocupação e pelas oportunidades.

Aos meus amigos, pela compreensão e preocupação, e por partilharem este percurso comigo.

Índice

I – Enquadramento conceptual	8
1. Qualidade de vida: Conceito genérico e aplicado ao contexto da saúde...	8
2. Qualidade de vida relacionada com saúde pediátrica	10
3. Baixa estatura: Características clínicas e limitações psicossociais	13
4. Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com baixa estatura: O projeto QoLISSY	15
5. O presente estudo: Objetivos e hipóteses	19
II – Metodologia	20
1. Procedimento	20
2. Participantes	21
3. Instrumentos	23
4. Análises Estatísticas	25
III – Resultados	26
1. Consistência interna	26
2. Validade de construto.....	27
3. Validade convergente.....	27
4. Concordância inter-avaliadores.....	28
5. Validade de grupos conhecidos.....	29
IV - Discussão	31
V - Conclusão.....	40
VI - Bibliografia	41

Índice de quadros

Quadro 1. Características sociodemográficas das crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento

Quadro 2. Características sociodemográficas dos cuidadores de crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento

Quadro 3. Características clínicas das crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática, défice de hormona de crescimento e outro diagnóstico

Quadro 4. Consistência interna do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato) – *Alfa de Cronbach*

Quadro 5. Validade de construto do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato)

Quadro 6. Validade convergente do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato)

Quadro 7. Concordância entre auto-relatos das crianças/adolescentes e hetero-relatos dos pais

Quadro 8. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento (auto-relato/ hétero-relato)

Quadro 9. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes do sexo feminino e masculino (auto-relato/ hétero-relato)

Quadro 10. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes que atingiram estatura normal e com baixa estatura atual (auto-relato/ hétero-relato)

Quadro 11. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes com tratamento e sem tratamento (auto-relato/ hétero-relato)

Lista de abreviaturas

QdV	Qualidade de Vida
QdVrS	Qualidade de Vida relacionada com a Saúde
QoLISSY	Quality of Life in Short Stature Youth
OMS	Organização Mundial de Saúde
DHC	Défice de Hormona de Crescimento
HC	Hormona de Crescimento
BEI	Baixa Estatura Idiopática
BE	Baixa Estatura
<i>p</i>	Nível de significância
<i>n</i>	Número de sujeitos
<i>M</i>	Média
<i>DP</i>	Desvio-Padrão
χ^2	Estatística do teste de Chi quadrado

Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões portuguesas dos questionários QoLISSY

I – Enquadramento conceptual

1. Qualidade de vida: Conceito genérico e aplicado ao contexto da saúde

Ao longo dos últimos anos, o interesse em investigar a qualidade de vida (QdV) do indivíduo tem sido cada vez maior, sendo propostas diversas definições para este conceito (Seidl & Zannon, 2004), e tal acontece devido aos avanços da tecnologia e também ao desenvolvimento da biologia em prol da saúde. Adicionalmente, várias áreas (e.g., psicologia e medicina) procuram promover o bem-estar do indivíduo, analisar e compreender a QdV deste com patologia, bem como compreender o impacto dos diversos tratamentos na sua saúde em geral (Eiser, 1997). Desta forma, têm sido propostas diversas definições para este conceito, com base em abordagens económicas (e.g., QdV como indicador social e político), psicológicas (e.g., percepção subjetiva do indivíduo à sua vivência), ou biomédicas (e.g., marcadores relacionados com a condição de saúde e efeitos dos tratamentos) (Minayo, Hartz & Buss, 2000; Day & Jankey, 1996; Seidl & Zannon, 2004). Atualmente, a grande variedade de conceitos existentes procuram abranger uma multiplicidade de dimensões englobadas nas designadas abordagens holísticas (Pereira, Teixeira, & Santos, 2012). Numa abordagem holística, o conceito de QdV pode ser descrito como multidimensional, com uma organização complexa e dinâmica dos seus componentes e que difere em todas as pessoas de acordo com o seu ambiente (Renwick & Brown, 1996). Como tentativa de análise deste conceito de uma forma mais ampla, e havendo um afastamento do reducionismo biomédico, Minayo, Hartz & Buss (2000) abordam-no como sendo uma representação social desenvolvida através de critérios subjetivos (e.g., felicidade, amor, prazer) e objetivos, como a satisfação das necessidades criadas pelo grau de desenvolvimento económico e social de determinada sociedade. Para além da saúde e bem-estar físico, funcional, emocional e mental do indivíduo, fatores como a economia, o progresso pessoal, o emprego, a cultura e o próprio desenvolvimento do indivíduo estão cada vez mais integrados na definição de

QdV (Day & Jankey, 1996; Pereira, Teixeira, & Santos, 2012).

Neste sentido, a Organização Mundial de Saúde (OMS) define QdV como “a percepção que o indivíduo tem da sua posição na vida, no contexto da cultura em que vive e do sistema de valores inerente, e em relação com os seus objetivos, expectativas, padrões e preocupações” (WHOQOL Group, 1995, p. 1405). Esta definição caracteriza-se fundamentalmente pela multidimensionalidade e subjetividade do conceito. A multidimensionalidade refere-se à importância de reconhecer as diferentes dimensões presentes no constructo, que incluem a capacidade física – percepção que o indivíduo tem sobre a sua condição física; psicológica – envolve a sua condição afetiva e cognitiva; percepção do ambiente – envolvimento em contexto onde se insere diariamente; e social – aspetos associados ao papel social do indivíduo (Seidl & Zannon, 2004). Já a sua natureza subjetiva refere-se à capacidade do próprio indivíduo em avaliar o seu estado de saúde, as suas condições de vida e expectativas, utilizando os processos cognitivos subjacentes para a percepção da sua QdV (Harding, 2001). Adicionalmente, é importante salientar que muitas das investigações que se têm dedicado ao tratamento científico de um conceito tão complexo e subjetivo, apenas se limitam à descrição de indicadores (e.g., escolaridade), por vezes sem haver uma investigação prévia sobre o propósito destes para as pessoas envolvidas (Pereira, Teixeira, & Santos, 2012).

Recentemente, na área da saúde, começou a haver um interesse cada vez maior por este conceito uma vez que saúde e doença são compreendidos como um *continuum* relacionado com aspetos económicos, sociais e culturais. Adicionalmente, a diminuição das taxas de mortalidade e morbilidade tem conduzido a uma mudança nas doenças, de predominantemente infecciosas a predominantemente crónico-degenerativas, ao mesmo tempo que os avanços nos tratamentos e a possibilidade de haver um maior controlo dessas doenças, têm permitido um aumento da esperança de vida (Han, Lee, Lee, & Park, 2003; Seidl & Zannon, 2004). Também o conceito de saúde proposto pela OMS, como um “um estado de completo bem-estar físico, mental e social, e não somente ausência de doença ou enfermidade” (OMS, 1948, p. 16) permite enfatizar os recursos pessoais, sociais e as capacidades físicas do indivíduo (WHOQOL Group, 1995). Assim, torna-se compreensível que haja um maior interesse por parte de investigadores e profissionais de saúde em avaliar a QdV na doença crónica, permitindo não só avaliar o impacto da doença mas

também dos tratamentos na vida dos indivíduos, ajudar a desenvolver maneiras de melhorar o ajustamento psicossocial à doença ou desenvolver formas de melhorar o bem-estar de maneira a que o indivíduo consiga ter, ou lhe possa ser proporcionada, uma melhor QdV diária (Killian, Matschinger & Angermeyer, 2001; Pais-Ribeiro, 1994).

No entanto, no contexto dos cuidados de saúde, é importante distinguir a QdV global da qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS), conceito que, segundo Spieth e Harris (1996), se refere ao impacto objetivo e subjetivo da doença e do tratamento. Tal conceito tornou-se particularmente saliente como um conceito subjetivo e multidimensional, podendo ser definido como “a capacidade de um indivíduo para atuar funcionalmente, emocionalmente e socialmente, perante um problema médico ou de saúde” (Liu et al., 2016, p. 807). Diferente do conceito genérico de QdV, que não faz referência direta a disfunções ou doenças, a QdVrS engloba aspetos diretamente associados às doenças e às intervenções em saúde. A sua avaliação permite, portanto, identificar o impacto que as doenças causam na QdV das pessoas (Seidl & Zannon, 2004), compreender como diferentes domínios são influenciados pelas características da doença e perceber a eficácia e eficiência dos tratamentos e intervenções utilizadas. Adicionalmente, esta avaliação é útil na identificação e priorização de problemas de saúde, no auxílio à tomada de decisão e na monitorização das alterações no estado de saúde dos doentes ou na resposta ao tratamento (Fayers & Machin, 2000).

2. Qualidade de vida relacionada com saúde pediátrica

A infância e a adolescência são etapas do desenvolvimento que envolvem imensas mudanças físicas, psicológicas e sociais e, como tal, podem ter diferentes impactos na vida futura de um indivíduo, positivos ou não, e que vão permitir às crianças desenvolverem significados e uma imagem de si próprias e dos outros (Mortágua, 2010). No contexto da doença crónica pediátrica, é importante avaliar a QdVrS, uma vez que isso vai permitir uma maior e melhor compreensão acerca do seu ponto de vista relativamente à sua saúde e promover estratégias que beneficiem uma melhor QdV (Gaspar et al., 2009). No entanto, apesar de ter aumentado o enfoque que se dá ao ponto de vista das crianças, ao contrário do que acontece com a população adulta, cujos estudos têm vindo a aumentar ao longo dos últimos anos, a investigação em

crianças e adolescentes tem tido uma progressão mais lenta (De Civita et al., 2005), devido questões conceptuais e metodológicas (Carona, Silva & Moreira, 2014). Especificamente, e de acordo com a OMS, os instrumentos de avaliação da QdVrS pediátrica devem incluir o auto e hetero-relato, serem desenvolvidas para a idade do sujeito/amostra em investigação, serem aplicáveis em contextos de investigação transcultural e devem considerar os aspetos específicos e gerais da QdVrS (World Health Organization, 1993).

Sendo um campo relativamente recente, a investigação na área da QdVrS pediátrica tem-se deparado com alguns desafios, dada a necessidade de ser ter em atenção uma perspetiva do desenvolvimento. Neste sentido, os instrumentos utilizados em crianças devem ter em consideração as mudanças desenvolvimentais e papéis característicos de cada idade (Spieth, 2001), bem como serem desenvolvidos, ou incluírem dimensões, apropriados para uma faixa etária específica (Wallander, Schmitt & Koot, 2001). Uma vez que as crianças se encontram rodeadas por vários contextos sociais (e.g., família, amigos, escola, comunidade), é importante lembrar que cada um deles exerce uma influência na sua QdVrS e tem um impacto diferente na condição crónica e no tratamento (Matza et al., 2004).

Ao longo do desenvolvimento, quando uma criança se depara com uma condição crónica, terá de se confrontar com acontecimentos inesperados (e.g., internamentos hospitalares, tratamentos dolorosos e incertezas acerca do seu futuro), que acabam por ter um impacto, de forma intensa, não só na QdV da criança mas também dos seus cuidadores (Eiser, 1997). A condição crónica poderá ainda provocar um atraso desenvolvimental a nível emocional e cognitivo, o que a poderá colocar em desvantagem em relação às crianças da mesma idade (Eiser & Morse, 2001b). Assim, pode ser questionável a capacidade da criança em conseguir perceber o conceito de saúde, uma vez que este muda de acordo com o seu desenvolvimento (Jenny & Campbell, 1997), e a sua capacidade em conseguir expressar opiniões, atitudes e sentimentos sobre a sua QdVrS (Cerveira, 2003). É certo que a sua percepção é diferente da percepção de um adulto, sendo que quando se depara com questões acerca de QdV, esta refere muitas vezes aspetos relacionados com aparência física, o número de amizades ou capacidades relacionadas com o exercício físico (Eiser, 1997). Quando uma criança responde a um instrumento, é preciso que já tenha um certo nível de maturidade emocional e habilidade cognitiva para ler e compreender a sua própria língua (De Civita et

al., 2005). Ao utilizar-se os auto-relatos das crianças com idades mais novas deve-se ter em conta que estas podem não fornecer informação considerada válida sobre constructos relacionados com a saúde complexos ou abstratos e, neste sentido, torna-se essencial utilizar o hetero-relato dos cuidadores ou familiares mais próximos (Matza et al., 2004).

Embora o conceito de QdVrS pressuponha que o próprio indivíduo é o único que pode fornecer informação válida sobre a sua QdVrS (Schlarmann et al., 2008) e o auto-relato seja considerado o padrão para avaliar a QdVrS subjetiva, podem existir circunstâncias em que as crianças e adolescentes se encontrem doentes, cansados, sejam demasiados novos para preencher os questionários que lhes são propostos (Varni et al., 2005) ou tenham dificuldades em interpretar as questões que lhes são colocadas devido a dificuldades cognitivas ou de aprendizagem (Silva et al., 2013) e, neste caso, torna-se essencial, também, o hetero-relato dos pais (Varni et al., 2005). Porém, poderão haver discrepâncias nas informações fornecidas, tendo em conta que os cuidadores poderão estar mais focados em aspetos como o funcionamento e experiências sociais, e os seus filhos com sentimentos e expectativas de futuro (De Civita et al., 2005). Adicionalmente, observa-se uma tendência para subestimar a QdV da criança em relação ao seu auto-relato (Sprangers & Aaronson, 1992). De forma a evitar os enviesamentos na informação e como alternativa aos hetero-relatos, os questionários poderiam ser aplicados pelo próprio entrevistador para assegurar a compreensão da criança (Juniper et al, 1996).

Os instrumentos utilizados para avaliar a QdVrS pediátrica podem ainda ser divididos em duas categorias: (a) medidas genéricas, que permitem comparar a QdVrS entre diferentes grupos da população, saudáveis ou com diferentes condições crónicas; e (b) medidas específicas, que têm em conta aspetos da doença e do tratamento relevantes para uma condição médica específica (Matza et al., 2004). Os instrumentos genéricos facultam resultados abrangentes sobre a saúde física, mental e social e permitem comparar a QdVrS entre diferentes grupos da população, saudáveis ou com diferentes condições crónicas (Davis et al., 2006). No entanto, mostram alguma falta de precisão e sensibilidade (Spieth & Harris, 1996). Os instrumentos específicos são mais sensíveis a mudanças na condição de saúde, mostram-se mais eficazes a detetar os efeitos de um tratamento (Matza et al., 2004), e facultam informação importante do ponto de vista clínico (Aaronson, 1988). A

desvantagem ao utilizar este tipo de instrumentos é que não permitem realizar comparações entre indivíduos com diferentes grupos de doenças (Spieth & Harris, 1996), ou em referência à população geral. Neste sentido, é recomendável que, sempre que possível, se utilize os dois tipos de medidas de uma forma complementar, de forma a obter um quadro mais completo da QdVrS (Eiser & Morse, 2001a).

A avaliação do conceito na população pediátrica poderá trazer múltiplos benefícios, como compreender o ponto de vista acerca do próprio bem-estar e comportamento da criança, avaliar o impacto de uma intervenção ou tratamento específico (Wallander, Schmitt, & Koot, 2001) e melhorar estratégias terapêuticas (De Civita et al., 2005). Ao escolher um instrumento para avaliar a QdVrS pediátrica é importante considerar se este se adequa ao propósito da investigação, se é adequado à idade da grupo em estudo e se os domínios da QdVrS abrangem os problemas que esse grupo experiencia (Schlarman et al., 2008). Adicionalmente, sempre que possível, as medidas devem ser constituídas por diferentes métodos de avaliação alternativos (e.g., pictogramas) (Ravens-Sieberer et al., 2001); o número de questões deve ser limitado, uma vez que as crianças processam menos itens que os adultos; devem ser utilizados itens relevantes que possam ser compreendidos pelas crianças e que permitam a comparação entre diferentes grupos de idades (The KIDSCREEN Group Europe, 2006).

3. Baixa estatura: Características clínicas e limitações psicossociais

A baixa estatura (BE) é uma condição que atualmente afeta entre 0,1% a 2,5% da população em geral (Wheeler et al., 2004). É definida como uma altura inferior a dois ou mais desvios-padrão (*DP*) abaixo da média (*M*) para a idade, sexo e população específica (Silva et al., 2013). O défice de hormona de crescimento (DHC) é uma das causas endócrinas mais comuns e deve-se à secreção insuficiente de hormona de crescimento (HC) (Dorado, 2016), encontrando-se presente em 5% das crianças com BE (The European QoLISSY Group, 2013). Entre as várias causas da BE, existem ainda síndromes genéticas que devem ser investigados quando o défice de crescimento é precoce e não há causas ambientais aparentes (e.g., síndrome de Turner) (Sandberg & Voss, 2002). Por outro lado existem causas relacionadas com malformações intrauterinas, perturbações endocrinológicas,

ósseas e cartilaginosas, doenças disabsortivas, cardíacas, pulmonares e renais, anemia crônica, uso de esteroides e radiação ou alterações de origem psicossocial que também devem ser tidas em consideração (Zeferino et al., 2003). Quando não existe uma causa específica e a BE não é atribuída a uma doença, designa-se por baixa estatura idiopática (BEI), sendo que a produção de HC é normal e não existe evidência de doença sistêmica, má nutrição, hipotiroidismo ou DHC (The European QoLISSY Group, 2013). As crianças com BEI não apresentam história de alterações no tamanho ao nascer, têm proporções do corpo normais, ingestão calórica adequada e não tem qualquer perturbação psiquiátrica, ou seja, é um diagnóstico de exclusão considerando-se outras condições reconhecíveis (Rosenfeld, 2005).

A injeção subcutânea diária de HC é considerado o tratamento mais seguro, eficaz, menos doloroso e aceite pelos pacientes para aumentar a velocidade do crescimento e normalizar a estatura quando adulto, em crianças com DHC (Tanaka et al., 2002). Embora as crianças com BEI apresentem níveis normais de secreção de HC, esta poderá ser insuficiente para estimular os seus recetores (Wit et al., 2008). Apesar de a investigação ter vindo a demonstrar que o tratamento de HC também se mostra eficaz nestas crianças, se o crescimento for lento, as crianças podem permanecer relativamente mais baixas em relação aos seus pares (Bryant et al., 2007).

De acordo com alguns autores, as crianças com BE apresentam atraso de maturação física e, portanto, aparentam ser fisicamente mais novas em relação à sua idade cronológica e menos competências atléticas em comparação aos seus pares com uma estatura superior, tornando-as mais vulneráveis a infantilização e sobreproteção por parte dos pais ou outros cuidadores ou a agressões físicas e verbais por parte dos pares (Rekers-Mombarg et al., 1998; Stabler et al., 1996; Theunissen et al., 2002; Holmes et al., 1982; Voss & Mulligan, 2000; Sandberg & Voss, 2002). Para além das limitações físicas (e.g., alcançar objetos em sítios mais altos) as crianças com BE têm maior probabilidade de vir a ter dificuldades sociais, académicas e psicológicas, como a estigmatização e baixa autoestima (Silva et al., 2017). Especificamente, imaturidade social, falta de assertividade, vergonha e falta de independência funcional têm sido descritas como consequências da BE (Sandberg & Voss, 2002). Por outro lado, a criança pode tentar compensar a sua BE acabando por ser agressiva ou demasiado assertiva (Meyer-Bahlburg, 1990). Em relação ao desempenho académico, um estudo mostrou que

muitas síndromes com BE estão associadas a insucesso escolar (Sandberg, 1996). No entanto, os estudos também mostram que este insucesso não se deve à questão física da altura, nem é resolvido com tratamento de HC (Voss, 2006).

Os problemas psicossociais associados à BE podem ser atribuídos, não apenas à altura, mas ao consequente atraso na puberdade (Steinhausen & Stahnke, 1976). No entanto, embora este atraso possa ser visto como um potencial stressor para os adolescentes com BE, os estudos apresentam resultados contraditórios. Por exemplo, Apter et al. (1981) sugeriram que a autoimagem era mais afetada pelo atraso de crescimento do que pelo atraso de maturação sexual; enquanto Money et al. (1977) demonstraram que, independentemente da altura, os rapazes com atraso na puberdade apresentavam uma adaptação social mais pobre.

Mais recentemente, vários autores têm refutado a associação entre BE e aumento dos problemas comportamentais ou emocionais, evidenciando ausência de relações estatisticamente significativas entre esta condição crónica e alterações do comportamento social, amizade ou aceitabilidade entre pares (Ross et al., 2004; Sandberg et al., 2004). Estes estudos são suportados pelo argumento de que estas crianças são capazes de se servir de mecanismos cognitivos de auto-proteção que lhes permite adaptar e proteger a sua autoestima (Sandberg et al., 1994). Assim, apesar das experiências stressantes serem frequentes, a psicopatologia propriamente dita é rara (Sandberg & Colsman & 2005). No entanto, é importante avaliar a QdV de crianças e adolescentes com BE, uma vez que esta condição crónica constitui um desafio ao longo do desenvolvimento (Ross et al., 2004).

4. Avaliação da qualidade de vida em crianças e adolescentes com baixa estatura: O projeto QoLISSY

A avaliação da QdV de crianças e adolescentes com BE permite ampliar a compreensão acerca do impacto psicológico desta condição, em termos de possíveis défices de funcionamento e bem-estar em comparação com outras populações clínicas e não clínicas (Brutt et al., 2009). Theunissen et al. (2002) realizaram um estudo que avaliou a QdVrS e autoestima de crianças com BEI que receberam tratamento com HC e constataram que, embora não houvesse um comprometimento da QdVrS nos vários domínios em geral, a subescala de funcionamento social apresentou um valor mais baixo em comparação à

população normal. Balen et al. (2005) também encontraram resultados interessantes ao questionarem os pais e adolescentes acerca da influência da BE. Na opinião dos pais, os seus filhos adolescentes com BEI apresentam mais tendências ansiosas ou depressivas, problemas sociais ou de atenção. Contudo, os adolescentes referem frequentemente competências normais, elevadas competências na adaptação social, perseverança e pouca angústia. Os adolescentes desejam ganhar altura mas a motivação subjacente permanece pouco clara, variando largamente de indivíduo para indivíduo (Balen et al., 2005). Koch (2000) explica que esta discrepância pode dever-se ao facto de o observador, um indivíduo saudável que avalia a QdV da criança, estar a refletir os seus próprios medos ou preocupações e não os que dizem respeito aos da pessoa cuja vida está a ser avaliada, comprometendo a validade e fidedignidade da informação obtida (De Civita et al., 2005).

Adicionalmente, a maioria da investigação realizada na população pediátrica com BE tem utilizado medidas genéricas que permitem, por um lado, comparar a QdVrS da população em geral e população pediátrica, mas, por outro lado, podem ser menos sensíveis às diferenças ou mudanças subtis mas clinicamente relevantes na QdVrS (Bullinger, 1997; Wiebe et al., 2003). Por exemplo, um estudo realizado por Stephen et al. (2011) investigou a QdVrS de crianças e adolescentes com BE, com e sem tratamento de HC, e os resultados sugeriram que, apesar de existirem diferenças entre crianças com diferentes graus de BE, não foi possível estudar os problemas específicos da BE, uma vez que o instrumento utilizado foi uma medida genérica (Silva et al., 2013). Brütt et al. (2009) identificaram cinco instrumentos para a avaliação da QdVrS específica em crianças e adolescentes com BE. No entanto, existe pouca evidência acerca do desempenho psicométrico destas medidas e da sua aplicabilidade em pacientes com BEI e DHC (Bullinger et al., 2009) e nenhuma delas permite avaliar todos os domínios potencialmente influenciados pela condição, seja como uma característica física isolada (e.g., BEI) ou como uma condição médica subjacente (e.g., DHC) (Brütt et al., 2009). A avaliação dos determinantes da QdV são igualmente importantes, como o coping e a adaptação, locus de controlo de saúde, crenças sobre saúde, suporte social e a rede social (Bullinger & Ravens-Sieberer, 1995). Infelizmente, não existe uma única medida válida que seja capaz de incluir todas estas especificidades (Drotar, 2004).

Ao longo dos anos tem havido um aparecimento e desenvolvimento

crecente de medidas que permitem avaliar a QdVrS (Burwinke, Lane, & Varni, 2005). Contudo, as medidas normalmente desenvolvidas para avaliar tal construto são desenvolvidas apenas na língua de um contexto cultural e são posteriormente utilizadas em outros países através da sua tradução, o que limita a avaliação compreensiva das especificidades culturais e linguísticas (Guillemin et al., 1993). Assim, não é possível realizar estudos comparativos entre várias populações, uma vez que é preciso ter conta alguns fatores que variam tendo em conta o contexto, como a percepção subjetiva de saúde e o significado de QdV (Bullinger & Schmidt, 2003). Vários autores recomendam que se desenvolvam instrumentos simultaneamente em vários países, que incluam todas as dimensões relevantes da QdVrS (Skevington, Sartorius & Amir, 2004). Em alternativa, uma adaptação transcultural implica que se atue a vários níveis, nomeadamente, no desenvolvimento e tradução dos instrumentos, bem como nos estudos psicométricos (Bullinger & Schmidt, 2003).

Neste sentido, foi desenvolvido e testado simultaneamente em cinco países europeus (França, Alemanha, Espanha, Suécia e Reino Unido) o instrumento QoLISSY (Quality of Life in Short Stature Youth), que permite avaliar especificamente a QdVrS de crianças e adolescentes entre 8 e 18 anos (versão de auto-relato) com BEI e DHC, bem como pais de crianças entre 4 e 18 anos (versão de hetero-relato) (Sommer et al., 2018). Na primeira fase de desenvolvimento do projeto (grupos focais), procurou-se gerar afirmações, para identificar domínios e itens relevantes, que traduzissem as experiências subjetivas e os seus sentimentos sobre a BE e o tratamento com HC (The European QoLISSY Group, 2013). Na seguinte fase (estudo-piloto), o objetivo foi obter informação quantitativa e qualitativa, para reter ou eliminar itens. Por último, testou-se as propriedades psicométricas do instrumento, nomeadamente a validade e fiabilidade (estudo-campo).

Deste modo, foi adotada uma abordagem desenvolvimentista para a QdV, que tem sido recomendada na literatura (Bullinger & Ravens-Sieberer, 1995; Eiser & Morse, 2001a), que permite focar na avaliação subjetiva das experiências e dos sintomas (The European QoLISSY Group, 2013) e é um instrumento que pode ser aplicado em diferentes contextos culturais (Bullinger et al., 2009). Os questionários QoLISSY consistem em 22 itens avaliados numa escala de Likert de 5 opções (entre *nada/nunca* e *muito/muitíssimo*) (Bullinger et al., 2014), distribuídos por três domínios

nucleares que dizem respeito aos aspetos físico (6 itens), social (8 itens) e emocional (8 itens) do bem-estar e funcionamento. O instrumento engloba, para além dos domínios nucleares, os domínios que refletem a QdVrS pediátrica (coping, crenças e tratamento) e permite interpretar resultados relacionados com os mediadores clínicos e psicossociais (Silva et al., 2013). Estas três escalas adicionais, incluídas em ambas as versões de auto- e hétero-relato, refletem os preditores da QdVrS: coping (10 itens), crenças relacionadas com a altura (4 itens) e impacto dos tratamentos (14 itens) (Bullinger et al., 2015). De acordo com o modelo conceptual da QdVrS específica para a BE, o resultado é afetado pela condição da criança e pelos mediadores, ou determinantes que regulam a intensidade do impacto da BE na QdVrS (The European QoLISSY Group, 2013). Os domínios nucleares podem ser combinados de forma a gerar uma pontuação global para a QdVrS de crianças e adolescentes com BEI e DHC (Bullinger et al., 2015). Na versão para os pais estão incluídas duas dimensões adicionais, com questões que avaliam a perceção dos pais sobre as preocupações dos filhos em relação ao impacto da baixa estatura no seu futuro (5 itens) e o impacto da condição dos filhos na vida dos pais (11 itens).

De acordo com o estudo psicométrico, ambas as versões (auto e hetero-relato) demonstraram boas consistências internas, com alfas de Cronbach superiores a 0.80, correlações elevadas entre todos os domínios e subescalas do QoLISSY, elevada concordância entre as versões de auto- e hétero-relato, e elevada validade convergente entre o QoLISSY e outros instrumentos (e.g., KIDSCREEN-52) (Sommer et al., 2014). Os resultados do estudo também mostram que as crianças com BEI, sem tratamento e com altura inferior apresentaram menor QdVrS em comparação às crianças com DHC, com tratamento e com menos desvio de altura (The European QoLISSY Group, 2013). Adicionalmente, os rapazes com BE sentem uma maior dificuldade em aceitar a sua condição e mais pressão a nível social uma vez que a altura é uma característica mais apreciada para eles em relação às raparigas (Balen, Sinnema, & Geenen, 2015).

Posteriormente, o QoLISSY foi adaptado para outros países (e.g., Estados Unidos), onde passou por processos de tradução para as respetivas línguas e pela avaliação psicométrica das suas propriedades, permitindo chegar à conclusão que os questionários são aceitáveis e bem compreendidos pelas crianças e pelos pais, têm boa equivalência conceptual, são válidos e

fiáveis para avaliar a QdV de crianças com DHC e BEI, e permitem comparar crianças de diferentes nacionalidades e diferentes contextos culturais (Rohenkohl et al., 2015, Sommer et al., 2014).

5. O presente estudo: Objetivos e hipóteses

Este estudo visa validar o questionário QoLISSY em Portugal, de forma a permitir avaliar o impacto físico, psicológico e emocional da BE através das perspetivas de crianças e adolescentes e dos seus pais. Especificamente, o presente estudo teve como principal objetivo analisar, a um nível de análise exploratório (estudo-piloto), as propriedades psicométricas dos questionários QoLISSY. Especificamente, pretendeu-se analisar a fiabilidade, em termos de consistência interna (coeficientes α de Cronbach) e de concordância inter-avaliadores; a validade de constructo, através da análise de correlação entre os diferentes domínios do instrumento; a validade convergente com os instrumentos de avaliação da QdVrS genérica (KIDSCREEN-10), QdVrS genérica para condições crónicas de saúde (DISABKIDS-10+2) e problemas de internalização e externalização (SDQ); e a validade de grupos conhecidos, através de testes comparativos entre crianças em tratamento com HC vs. sem tratamentos, crianças com DHC vs. BEI, crianças que atingiram estatura normal vs. baixa estatura atual, e entre rapazes e raparigas.

Relativamente à fiabilidade inter-avaliadores, espera-se que:

H1: A QdVrS das crianças e adolescentes com BEI e DHC apresentará valores inferiores quando avaliada pelos cuidadores, em comparação com o auto-relato das crianças e esta discrepância será maior para os domínios não observáveis da QdV, nomeadamente os domínios emocional e social.

Em relação à análise da validade convergente, estabeleceu-se a seguinte hipótese:

H2: A QdVrS específica, avaliada pelo instrumento QoLISSY, apresentará correlações positivas moderadas a fortes com a QdVrS genérica para condições crónicas, e correlações positivas fracas a moderadas com a QdVrS genérica e correlações negativas fracas a moderadas com os problemas de internalização e externalização.

Em relação à validade de grupos conhecidos, e tendo em conta a revisão da literatura efetuada, estabeleceram-se as seguintes hipóteses de investigação:

H3: As crianças e adolescentes com DHC e a receber tratamento com HC apresentarão melhor QdVrS, comparativamente às crianças e adolescentes com BEI e que não estão a receber tratamentos.

H4: As crianças e adolescentes que atingiram estatura normal (i.e., desvio inferior a $-2 DP$), devido ao tratamento ou ao crescimento normativo, apresentarão melhor QdVrS, comparativamente às crianças e adolescentes com baixa estatura atual.

H5: As raparigas apresentarão maior QdVrS em comparação aos seus pares do sexo masculino.

II – Metodologia

Na próxima secção, é descrita a metodologia relativamente às características da amostra, à apresentação dos instrumentos de avaliação e procedimentos estatísticos utilizados.

1. Procedimento

O presente estudo foi realizado com uma amostra de conveniência (amostra não probabilística) constituída por 25 díades de crianças/adolescentes com baixa estatura e seus pais. Os critérios de inclusão na amostra foram: diagnóstico clínico de DHC ou BEI; desvio de altura superior a $-2 DP$ em relação às normas nacionais para a idade e sexo, no momento do diagnóstico; idade compreendida entre 4 e 18 anos de idade; nacionalidade portuguesa e capacidade cognitiva para compreensão e preenchimento dos questionários. Em ambas as fases do estudo, pretende-se também que estejam representadas crianças e adolescentes de ambos os sexos, e a realizar tratamento e sem tratamento, de modo a obter respostas e opiniões diversificadas.

O estudo foi aprovado pela Comissão de Ética e Deontologia da Investigação (CEDI) da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e pela Comissão de Ética para a Saúde do Centro Hospitalar de São João, E.P.E. A amostra foi recolhida entre Outubro de 2017 e Março de 2018 no Serviço de Pediatria do Hospital Pediátrico Integrado no Centro Hospitalar de São João, E.P.E. O recrutamento das participantes do estudo ocorreu presencialmente. Começou-se por fazer uma seleção prévia

das crianças/adolescentes elegíveis, através do Pediatra assistente da Unidade de Endocrinologia Pediátrica. Os sujeitos que aceitaram participar no estudo tiveram conhecimento, através do consentimento informado (para os pais/tutores legais e adolescentes a partir dos 13 anos), dos objetivos e condições do estudo, nomeadamente da garantia de confidencialidade sobre os dados fornecidos e na utilização dos mesmos apenas para fins de investigação. A aplicação do protocolo de avaliação não excedeu os 90 minutos por indivíduo e durante o preenchimento dos questionários esteve sempre presente um psicólogo estagiário da Unidade de Endocrinologia Pediátrica ou o psicólogo clínico para prestar assistência caso fosse necessária.

2. Participantes

A seguir são apresentadas a frequência e a percentagem das principais características sociodemográficas e clínicas das crianças e adolescentes com BEI e DHC bem com os resultados das comparações entre estes dois grupos no que diz respeito às variáveis género, idade, ano escolar e reprovações (Quadro 1).

Quadro 1. Características sociodemográficas das crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento

Características sociodemográficas	Crianças e adolescentes com BEI (<i>n</i> = 7)		Crianças e adolescentes com DHC (<i>n</i> = 12)	
	Frequência	%	Frequência	%
Sexo				
Masculino	6	85.7	5	41.7
Feminino	1	14.3	7	58.3
Idade				
Crianças (4-7)	3	42.9	0	0.0
Crianças (8-12)	2	28.6	6	50.0
Adolescentes (13-18)	2	28.6	6	50.0
	<i>M</i> = 9.00	<i>DP</i> = 3.83	<i>M</i> = 12.67	<i>DP</i> = 3.17
Ano escolar				
Pré-escola	2	28.6	0	0.0
1º- 4º ano	1	14.3	3	25.0
5º- 6º ano	2	28.6	3	25.0
7º - 9º ano	2	28.6	1	8.3
10º - 12º ano	0	0.0	5	41.7
Reprovações				
Sim	1	14.3	2	16.7
Não	6	85.7	10	83.3

A amostra de crianças e adolescentes com BEI foi constituída por 3
 Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões
 portuguesas dos questionários QoLISSY
 Sara Costa da Silva Vallejo (e-mail:s_csv@hotmail.com) 2018

crianças entre os 4 e 7 anos, 2 crianças entre os 8 e 12 anos e 2 crianças entre os 13 e 18 anos ($M = 9.00$; $DP = 3.83$). O grupo de crianças e adolescentes com défice de hormona de crescimento incluiu 6 crianças entre 8 e 12 anos e 6 adolescentes entre 12 e 18 anos ($M = 12.67$; $DP = 3.17$). Adicionalmente, a amostra incluiu 6 participantes com diferentes síndromes causadores de baixa estatura (e.g., restrição de crescimento intra-uterino, Síndrome de Desbuquois) ou de diagnóstico desconhecido. O grupo com DHC apresentou, em média, idade superior ao grupo com BEI ($U = 18.50$, $p = .05$). Não foram encontradas diferenças significativas na distribuição do sexo ($\chi^2_{(2)} = 3.60$, $p = .17$), nível de escolaridade ($\chi^2_{(2)} = 13.66$, $p = .09$) ou número de retenções ($\chi^2_{(2)} = 0.93$, $p = .63$) entre os grupos clínicos.

No quadro que se segue apresentam-se as características sociodemográficas dos pais das crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento (Quadro 2).

Quadro 2. Características sociodemográficas dos cuidadores de crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento

Características sociodemográficas	Pais de crianças e adolescentes com BEI ($n = 7$)		Pais de crianças e adolescentes com DHC ($n = 12$)	
	Frequência	%	Frequência	%
Respondente				
Mãe	5	71.4	7	58.3
Pai	1	14.3	4	33.3
Outro	1	14.3	0	0.0
Idade da mãe	$M = 38.67$	$DP = 4.93$	$M = 43.00$	$DP = 6.63$
Idade do pai	$M = 41.17$	$DP = 7.55$	$M = 46.73$	$DP = 6.05$
Estado civil da mãe				
Solteiro	0	0.0	1	8.3
Casado/União de facto	6	85.7	8	66.7
Divorciado/Separado	0	0.0	2	16.7
Estado civil do pai				
Solteiro	0	0.0	1	8.3
Casado/União de facto	7	100.0	8	66.7
Divorciado/Separado	0	0.0	1	8.3
Número de filhos	$M = 1.67$	$DP = 0.82$	$M = 1.60$	$DP = 0.84$

Em ambos os grupos clínicos, o grupo de pais foi maioritariamente composto por mães (72.0%), casadas ou em união de facto (76.0%). A amostra de pais foi homogénea em relação às características sociodemográficas, nomeadamente em relação a quem preencheu o questionário ($\chi^2_{(4)} = 5.80$, $p =$

.22), à idade da mãe ($U = 25.00, p = .30$), idade do pai ($U = 20.00, p = .19$), estado civil da mãe ($\chi^2_{(4)} = 2.51, p = .64$) e do pai ($\chi^2_{(4)} = 2.57, p = .63$), e número de filhos ($U = 28.00, p = .81$).

No quadro 3 descrevem-se as variáveis clínicas (altura, comorbilidades, doenças/condição médica e tratamento), dos dois grupos de crianças e adolescentes com baixa estatura, com a descrição das frequências e das percentagens.

Quadro 3. Características clínicas das crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática, défice de hormona de crescimento e outro diagnóstico

Características clínicas	Crianças com BEI (n = 7)		Crianças com DHC (n = 12)		Outro diagnóstico/ desconhecido (n = 6)	
	Freq.	%	Freq.	%	Freq.	%
Desvio de altura actual						
Estatura normal (> - 2 DP)	4	57.1	6	50.0	2	33.3
Baixa estatura (< = - 2 DP)	3	42.9	6	50.0	4	66.7
Comorbilidades						
Sim	5	28.6	8	66.7	2	33.3
Não	2	71.4	4	33.3	4	66.7
Tratamento						
Sim	1	14.3	7	58.3	1	16.7
Não	6	85.7	5	41.7	5	83.3

Não foram encontradas diferenças significativas nas características clínicas dos três grupos, nomeadamente em relação ao desvio de altura actual ($\chi^2_{(2)} = 0.77, p = .68$), presença de comorbilidades ($\chi^2_{(2)} = 3.25, p = .20$), ou tratamento ($\chi^2_{(2)} = 5.00, p = .08$).

3. Instrumentos

O protocolo de avaliação incluiu um conjunto de instrumentos de autoadministração, nomeadamente uma ficha de dados sociodemográficos e clínicos; versão piloto dos questionários QoLISSY; questionários KIDSCREEN-10; DISABKIDS-10+2 e Questionário de Capacidades e Dificuldades (SDQ).

- Ficha de dados sociodemográficos e clínicos: este questionário avalia um conjunto de informação sociodemográfica das crianças/adolescentes e dos

pais (e.g., idade, sexo, escolaridade, área de residência) bem como informação clínica da condição de saúde da criança (e.g., altura actual, diagnóstico, tratamento).

- Questionários QoLISSY (Silva et al., 2013): constituídos por 22 itens avaliados numa escala de Likert de 5 opções – entre 1- “*nada/nunca*” e 5- “*muíttíssimo/sempr*e” - distribuídos por três domínios nucleares: físico (6 itens), social (8 itens) e emocional (8 itens). Os três domínios nucleares podem ser combinados de forma a gerar uma pontuação global da QdVrS das crianças e adolescentes com DGH e BEI. A versão de auto-relato inclui ainda três domínios que refletem os preditores da QdVrS pediátrica: coping (10 itens), crenças relacionadas com a altura (4 itens) e impacto dos tratamentos (14 itens). A versão de hetero-relato tem essencialmente a mesma estrutura e conteúdo que a versão de auto-relato, embora os itens estejam formulada na 3ª pessoa para que os pais possam reportar a QdVrS dos seus filhos, e incluem duas dimensões adicionais que avaliam a perceção dos pais sobre as preocupação dos filhos em relação ao impacto da baixa estatura no seu futuro (5 itens) e o impacto da condição dos filhos na QdV dos pais (11 itens).

- KIDSCREEN-10 (Ravens-Sieberer et al., 2006; Versão Portuguesa: Matos, Gaspar, & Simões, 2012) é uma versão reduzida do instrumento KIDSCREEN-52. Permite avaliar a saúde subjetiva geral de crianças e adolescentes entre os 8 e os 18 anos e pode ser aplicado a crianças saudáveis e com condições crónicas. É composto por 10 itens (e.g., “Sentes-te bem e em forma?”) e as escalas de resposta são do tipo Likert de cinco pontos – “*Nada*”, “*Pouco*”, “*Moderadamente*”, “*Muito*” e “*Totalmente*”. Um valor baixo neste instrumento sugere um sentimento de insatisfação e desadequação face aos diversos contextos da vida das crianças e adolescentes, nomeadamente, família, grupo de pares e escola. Um valor elevado, por sua vez, sugere uma perceção de adequação e satisfação com os seus contextos.

- DISABKIDS-10+2 (The European DISABKIDS Group, 2006; Versão Portuguesa: Carona, Silva, Moreira, Canavarro, & Bullinger, 2015) é a versão curta do DISABKIDS-37 e permite avaliar a QdVrS de crianças e adolescente entre os 8 e 18 anos com condições crónicas. É composto por 10 itens que medem o impacto mental, social e físico do estado de saúde (e.g., “O teu problema de saúde deixa-te triste?”) e dois itens que abordam o impacto

do tratamento (e.g., “Ficas aborrecido por tomar os teus medicamentos?”). As perguntas pedem aos sujeitos para se focarem nas últimas quatro semanas e tem uma escala de resposta tipo-Likert de 5 pontos – “*Nunca*”; “*Raramente*”; “*Algumas vezes*”; “*Muitas vezes*”; “*Sempre*”, em que as pontuações mais elevadas indicam uma maior QdVrS.

- SDQ (Strengths and Difficulties Questionnaire) (Goodman, 1997; Versão Portuguesa: Fleitlich, Loureiro, Fonseca, & Gaspar, 2005) é um questionário que avalia problemas de saúde mental infantil e pretende identificar comportamentos sociais adequados e não adequados (capacidades e dificuldades), abrangendo idades dos 3/4 aos 16 anos, podendo ser respondido por pais, professores e pelo próprio (a partir dos 11 anos). É composto por 25 itens, organizados em cinco escalas (Sintomas Emocionais, Problemas de Comportamento, Hiperactividade, Problemas de Relacionamento com Colegas, Comportamento Pró-Social), cada uma composta por 5 itens, tendo cada item três opções de resposta (0 – “*Não é verdade*”, 1 – “*Pouco Verdade*” e 2 – “*Muito verdade*”). A soma das quatro escalas de problemas (com exceção da escala de comportamento pró-social) permite calcular um total de dificuldades que pode variar entre 0 e 40. Uma pontuação alta ou limítrofe em qualquer das escalas ou no total corresponde à presença de dificuldades.

4. Análises Estatísticas

Inicialmente procedeu-se à construção da base de dados no programa estatístico *Software Statistical Package for the Social Sciences* (SPSS, versão 22). Após a inserção dos dados, prosseguiu-se com o tratamento estatístico, onde foram calculadas estatísticas descritivas (frequências e percentagens, médias e *DP*) para efeitos de caracterização sociodemográfica e clínica da amostra. A homogeneidade das características da amostra entre os dois grupos foi analisada através de testes *U* de Mann-Whitney (variáveis contínuas) e testes de Qui-quadrado (variáveis categoriais).

Para analisar as qualidades psicométricas do QoLISSY, recorreu-se ao cálculo dos coeficientes α de Cronbach, que é considerado uma das medidas mais usadas para avaliar a consistência interna (Gageiro & Pestana, 2003) e acordo inter-avaliadores, analisada através do cálculo dos coeficientes de correlação intraclasses (ICC); validade de construto, através do cálculo dos

coeficientes de correlação de Pearson entre as dimensões do instrumento; validade convergente, através do cálculo dos coeficientes de correlação entre o instrumento QoLISSY e os instrumentos de avaliação da QdVrS genérica (KIDSCREEN-10), QdVrS genérica para condições crónicas de saúde (DISABKIDS-10+2) e problemas psicológicos (SDQ); e validade de grupos conhecidos, analisada através de testes comparativos. Uma vez que a mostra tem uma dimensão reduzida, recorreu-se ao teste *U* de Mann-Whitney, que é considerado o equivalente não paramétrico do teste *t*-student.

III – Resultados

Nesta secção, são apresentados os resultados das análises estatísticas realizadas, de acordo com os objetivos apresentados, permitindo confirmar ou infirmar as hipóteses de investigação previamente formuladas. Foram analisadas as propriedades psicométricas de ambas as versões (auto e hetero-relato) da versão portuguesa do QoLISSY, através da análise da consistência interna, validade de construto, validade convergente, concordância inter-avaliadores e da validade de grupos conhecidos.

1. Consistência interna

Através do cálculo dos coeficientes Alfa de Cronbach foi possível analisar a consistência interna para a versão de auto-relato de crianças e adolescentes e hetero-relato dos cuidadores.

Quadro 4. Consistência interna do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato) – Alfa de Cronbach

Domínios	Alfa de Cronbach	Número de casos	Número de itens
Físico	.70/.87	18/22	6/6
Social	.87/.88	18/20	8/8
Emocional	.84/.88	19/23	8/8
Total do módulo nuclear	.90/.95	17/19	22/22
Coping	.85/.85	17/19	10/10
Crenças	.86/.92	19/22	4/4
Tratamento	.80/.92	8/7	14/14
Futuro	-.1.93	- /22	- /5
Efeito nos pais	-.1.69	- /14	- /11

Ambas as versões do QoLISSY demonstram uma boa consistência
Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões
portuguesas dos questionários QoLISSY
Sara Costa da Silva Vallejo (e-mail:s_csv@hotmail.com) 2018

interna, com coeficientes alfa superiores a .70, para o total do módulo nuclear e para todos os domínios, com exceção do domínio *Efeito nos pais* na versão de hetero-relato, que apresenta um valor mais baixo (.69) (Quadro 4).

2. Validade de construto

Como forma de analisar a validade de construto do instrumento QoLISSY, foram analisadas as correlações entre as diferentes subescalas e entre estas e a pontuação total do instrumento, cujos resultados são apresentados no quadro 5:

Quadro 5. Validade de construto do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato)

Domínio	1	2	3	4	5	6	7	8
1. Físico	-							
2. Social	.77*/ .78**	-						
3. Emocional	.54*/ .52*	.75**/ .71**	-					
4. Coping	-.10/ .23	-.08/ .14	.13/ .42	-				
5. Crenças	.67**/ .25	.70**/ .45*	.81**/ .60**	-.19/ .44	-			
6. Tratamento	.52/ .41	.60/ -.03	.36/ -.44	.47/ -.43	.04/ -.93	-		
7. Futuro	-/ .52*	-/ .82**	-/ .62**	-/ .28	-/ .52	-/ -.28	-	
8. Efeito nos pais	-/ .65**	-/ .80**	-/ .57**	-/ .18	-/ .17	-/ -.23	-/ .75**	-
9. QoLISSY Total	.85**/ .86**	.96**/ .94**	.86**/ .86**	-.02/ .30	.82**/ .50*	.57/ -.11	-/ .75**	-/ .77**

* $p < .05$; ** $p < .01$, two-tailed.

Na sua generalidade, os domínios encontram-se positivamente correlacionados entre si e com a pontuação total do QoLISSY, em ambas as versões, com algumas exceções, nomeadamente os domínios *coping* e *tratamento* apresentam correlações fracas e não significativas com os restantes e com a pontuação total do QoLISSY. Os domínios adicionais da versão de hetero-relato apresentam correlações estatisticamente significativas e fortes entre si e com o total da escala.

3. Validade convergente

De forma a verificar se existe uma relação entre os instrumentos de avaliação da QdVrS adicionais e a versão portuguesa do QoLISSY, recorreu-se à análise da validade convergente (Quadro 6).

Quadro 6. Validade convergente do QoLISSY (auto-relato/ hétero-relato)

	Físico	Social	Emocional	QoLISSY total	Coping	Crenças	Tratamento	Futuro	Efeito nos pais
KIDSCREEN-10	.47*/.26	.48*/.11	.30/.36	.49*/.28	.22/.49*	.24/.38	.23/.06	/ .32	/ .22
DISABKIDS-10	.65**/.66**	.80**/.76**	.51*/.74**	.77**/.82**	.12/.36	.45/.57**	.60/-.22	/ .80**	/ .72**
Sintomas emocionais	-.46/-.48*	-.39/-.51*	-.37/-.63**	-.46/-.62**	-.01/-.17	-.42/-.55*	-.24/-.65	/ -.54*	/ -.51*
Problemas do comportamento	-.51*/.04	-.52*/.23	-.29/-.05	-.51*/-.08	.16/-.05	-.33/-.36	-.38/-.53	/ .26	/ .04
Hiperatividade	.00/-.01	-.07/-.17	-.06/-.05	-.06/-.04	.08/-.18	-.13/-.14	-.52/-.71	/ -.00	/ .04
Problemas com colegas	-.66**/-.39	-.61*/-.36	-.39/-.28	-.63**/-.39	-.07/-.57*	-.47/-.42	-.33/-.33	/ -.48*	/ -.40
Comportamento Pro-social	-.22/-.27	-.24/-.41	-.28/-.12	-.29/-.129	.35/-.51*	-.14/-.02	-.15/-.45	/ -.16	/ -.23
Total de dificuldades	-.43/-.29	-.42/-.13	-.31/-.34	-.45/-.29	.08/-.34	-.37/-.13	-.42/-.65	/ -.28	/ -.27

* $p < .05$; ** $p < .01$, two-tailed.

Os resultados demonstram correlações significativas e positivas entre os domínios do QoLISSY e ambos os instrumentos de avaliação da QdVrS, com exceção do domínio *tratamento*, sendo as correlações mais fortes com o instrumento crónico-genérico DISABKIDS. No SDQ, os sintomas emocionais, problemas com os colegas e problemas de comportamento apresentaram algumas correlações significativas e negativas com as subescalas do questionário QoLISSY, enquanto a hiperatividade e o comportamento pró-social foram os domínios que apresentam correlações mais fracas e não significativas com o QoLISSY.

4. Concordância inter-avaliadores

Para avaliar a concordância entre o auto e hetero-relato calcularam-se coeficientes de correlação intraclassa (ICC) (Quadro 7).

Quadro 7. Concordância entre auto-relatos das crianças/adolescentes e hetero-relatos dos pais

	Auto-relato M (DP)	Hetero-relato M (DP)	ICC
Físico	4.29 (0.55)	4.05 (0.84)	.49
Social	4.20 (0.76)	3.73 (0.85)	.28
Emocional	4.44 (0.61)	3.58 (0.95)	-.07
Coping	3.46 (0.99)	2.97 (0.91)	.40
Crenças	4.13 (1.04)	3.35 (1.19)	.26
Tratamento	3.24 (0.79)	3.16 (0.89)	.45
QoLISSY TOTAL	4.31 (0.57)	3.79 (0.78)	.23

* $p < .05$; ** $p < .01$, two-tailed.

Os resultados mostram concordância fraca entre os auto-relatos das Qualidade de vida de crianças e adolescentes com baixa estatura: Estudo-piloto das versões portuguesas dos questionários QoLISSY
Sara Costa da Silva Vallejo (e-mail:s_csv@hotmail.com) 2018

crianças/ adolescentes e os hétero-relatos dos seus pais, sendo que maior concordância foi observada para a dimensão física da QdVrS, coping e tratamento.

5. Validade de grupos conhecidos

Uma vez que se tratam de amostras de pequenas dimensões ($n < 30$), usou-se o teste não paramétrico U de Mann-Whitney para amostras independentes, de forma a realizar comparações entre diferentes grupos, nomeadamente, crianças com BEI e DHC, rapazes e raparigas, crianças que atingiram estatura normal e com baixa estatura atual, e crianças com e sem tratamento. Os resultados são apresentados nos Quadros 8, 9, 10 e 11.

Quadro 8. Teste U de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes com baixa estatura idiopática e défice de hormona de crescimento (auto-relato/ hétero-relato)

	BEI	DHC	U	Z	P
	($n = 7$)	($n = 12$)			
	M (DP)	M (DP)			
Físico	4.75 (0.10)/ 4.04 (0.48)	4.29 (0.48)/ 3.88 (1.09)	9.00/ 35.00	-1.71/ -0.32	.09/ .75
Social	4.69 (0.16)/ 3.53 (0.78)	4.38 (0.50)/ 3.79 (1.04)	12.00/ 29.50	-1.32/ -0.82	.19/ .41
Emocional	4.94 (0.13)/ 3.50 (0.76)	4.57 (0.35)/ 3.44 (1.19)	7.00/ 37.50	-2.04/ -0.09	.04/ .93
Coping	3.55 (0.96)/ 2.82 (1.07)	3.57 (1.12)/ 2.86 (1.02)	21.00/ 27.00	-0.13/ -0.12	.90/ .91
Crenças	4.88 (0.25)/ 3.36 (1.10)	4.30 (0.77)/ 3.15 (1.45)	11.50/ 33.50	-1.45/ -0.15	.15/ .88
Tratamento	- / 3.64 (0.00)	3.33 (0.82)/ 3.18 (1.00)	- / 2.00	- / -0.50	- / .62
Futuro	- / 3.75 (1.22)	- / 3.98 (1.19)	- / 31.00	- / -0.39	- / .69
Efeito nos pais	- / 3.31 (0.50)	- / 3.16 (0.94)	- / 31.50	- / 0.00	- / 1.00
QoLISSY Total	4.79 (0.08)/ 3.69 (0.47)	4.41 (0.30)/ 3.70 (1.04)	4.00/ 33.00	-2.35/ -0.50	.02/ .62

Os testes U de Mann-Whitney revelam que existem diferenças estatisticamente significativas entre os dois diagnósticos, nas versões de auto-relato, quer para o domínio *emocional*, $U = 7.00$ ($Z = -2.04$), $p = .04$, quer na pontuação total do QoLISSY, $U = 4.00$ ($Z = -2.35$), $p = 0.02$, sendo que as crianças e adolescentes com DHC reportaram pior QdVrS emocional e total, em comparação com os seus pares com BEI.

Quadro 9. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes do sexo feminino e masculino (auto-relato/ hétero-relato)

	Rapazes (<i>n</i> = 11)	Raparigas (<i>n</i> = 8)	<i>U</i>	<i>Z</i>	<i>P</i>
	<i>M</i> (<i>DP</i>)	<i>M</i> (<i>DP</i>)			
Físico	4.23 (0.64)/ 3.96 (0.93)	4.40 (0.42)/ 4.17 (0.74)	38.00/ 53.50	-0.50/ -0.72	.62/ .47
Social	4.17 (0.89)/ 3.47 (0.92)	4.23 (0.58)/ 4.07 (0.65)	42.00/ 38.00	-0.17/ -1.68	.87/ .09
Emocional	4.50 (0.65)/ 3.31 (0.99)	4.36 (0.58)/ 3.93 (0.82)	34.50/ 42.50	-0.80/ -1.40	.42/ .16
Coping	3.27 (0.93)/ 2.70 (1.00)	3.73 (1.07)/ 3.46 (0.45)	29.50/ 23.50	-1.20/ -1.745	.23/ .08
Crenças	4.16 (1.23)/ 3.02 (1.06)	4.10 (0.79)/ 3.83 (1.26)	37.00/ 34.00	-0.60/ -1.65	.55/ .10
Tratamento	3.33 (1.32)/ 3.34 (0.59)	3.19 (0.46)/ 2.99 (1.19)	7.00/ 6.00	-0.15/ -0.58	.88/ .56
Futuro	-/ 3.51 (1.17)	-/ 4.69 (0.39)	-/ 19.00	-/ -2.66	-/ .01
Efeito nos pais	-/ 3.09 (0.71)	-/ 3.63 (0.68)	-/ 28.00	-/ -1.85	-/ .06
QoLISSY total	4.30 (0.70)/ 3.58 (0.85)	4.33 (0.39)/ 4.05 (0.61)	34.50/ 42.50	-0.79/ -1.40	.43/ .16

Os resultados do quadro 9 indicam que não existem diferenças estatisticamente significativas na QdVrS auto-relatada entre rapazes e raparigas. No entanto, os pais de crianças/adolescentes do sexo feminino reportaram maior QdVrS no domínio Futuro, comparativamente aos pais de crianças e adolescentes do sexo masculino, $U = 19.00$ ($Z = -2.66$), $p = 0.01$.

Quadro 10. Teste *U* de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes que atingiram estatura normal e com baixa estatura atual (auto-relato/ hétero-relato)

	Crianças com estatura normal (<i>n</i> = 9)	Crianças com BE atual (<i>n</i> = 16)	<i>U</i>	<i>Z</i>	<i>P</i>
	<i>M</i> (<i>DP</i>)	<i>M</i> (<i>DP</i>)			
Físico	4.35 (0.57)/ 4.36 (0.48)	4.22 (0.56)/ 3.71 (1.03)	39.00/ 37.50	-0.49/ -1.76	.62/ .08
Social	4.30 (0.84)/ 4.08 (0.56)	4.09 (0.68)/ 3.34 (0.96)	28.00/ 35.00	-1.40/ -1.91	.16/ .06
Emocional	4.60 (0.58)/ 4.02 (0.51)	4.26 (0.63)/ 3.09 (1.10)	26.00/ 28.50	-1.58/ -2.31	.11/ .02
Coping	3.68 (1.07)/ 2.99 (1.01)	3.22 (0.90)/ 2.93 (0.82)	32.50/ 47.50	-1.02/ -0.04	.31/ .97
Crenças	4.45 (0.72)/ 3.71 (1.17)	3.78 (1.25)/ 2.92 (1.12)	29.00/ 34.50	-1.35/ -1.69	.18/ .09
Tratamento	3.69 (1.11)/ 3.43 (0.98)	2.97 (0.49)/ 3.01 (0.91)	3.00/ 6.00	-1.34/ -0.45	.18/ .66
Futuro	-/ 4.20 (0.66)	-/ 3.78 (1.40)	-/ 59.00	-/ -0.07	-/ .95
Efeito nos pais	-/ 3.32 (0.36)	-/ 3.32 (0.98)	-/ 44.50	-/ -0.74	-/ .46
QoLISSY total	4.42 (0.61)/ 4.15 (0.37)	4.19 (0.53)/ 3.38 (0.91)	27.50/ 29.50	-1.43/ -2.25	.15/ .03

De acordo com o quadro 10, existem diferenças estatisticamente

significativas, para a versão de hetero-relato, nos domínios *emocional*, $U = 28.50$ ($Z = -2.31$), $p = .02$, e na *pontuação total do QoLISSY*, $U = 27.50$ ($Z = -2.25$), $p = .03$, sendo que os pais de crianças e adolescentes que atingiram estatura normal no momento da avaliação reportaram melhor QdVrS do que os pais de crianças e adolescentes que permanecem com um desvio de altura superior a -2 DP.

Quadro 11. Teste U de Mann-Whitney entre crianças e adolescentes com tratamento e sem tratamento (auto-relato/ hétero-relato)

	Crianças com tratamento ($n = 9$)	Crianças sem tratamento ($n = 16$)	U	Z	P
	M (DP)	M (DP)			
Físico	4.37 (0.59)/ 3.81 (0.66)	4.23 (0.54)/ 4.17 (0.92)	37.00 /33.50	-0.58/ -1.72	.56/ .09
Social	4.23 (0.83)/ 3.71 (0.69)	4.17 (0.74)/ 3.74 (0.95)	41.00 /54.00	-0.25/ -0.39	.80/ .70
Emocional	4.37 (0.58)/ 3.51 (1.07)	4.49 (0.66)/ 3.61 (0.92)	36.00 /56.50	-0.67/ -0.23	.50/ .82
Coping	3.56 (1.00)/ 2.74 (1.00)	3.39 (1.03)/ 3.04 (0.91)	40.50 /30.00	-0.29/ -0.66	.77/ .51
Crenças	4.21 (0.84)/ 2.89 (1.28)	4.07 (1.19)/ 3.57 (1.12)	42.00 /36.50	-0.17/ -1.13	.87/ .26
Tratamento	3.24 (0.79)/ 3.16 (0.89)	-/ -	-/ -	-/ -	-/ -
Futuro	-/ -	-/ 4.04 (1.18)	-/ 47.00	-/ -0.62	-/ .54
Efeito nos pais	-/ -	-/ 3.28 (0.79)	-/ 47.50	-/ -0.11	-/ .91
QoLISSY total	4.32 (0.59)/ 3.68 (0.64)	4.29 (0.58)/ 3.84 (0.86)	40.50/ 47.00	-0.29/ -0.84	.77/ .40

Os testes U de Mann-Whitney revelam que não existem diferenças estatisticamente significativas entre crianças com e sem tratamento.

IV – Discussão

Após a apresentação dos resultados, iremos agora proceder à discussão e análise das suas implicações, tendo em conta a revisão da literatura efetuada e as hipóteses de investigação formuladas previamente. Neste sentido, o objetivo primordial da presente dissertação prende-se com a validação psicométrica das versões de auto e hetero-relato dos questionários QoLISSY, permitindo obter um instrumento de avaliação que possa ser usado na avaliação da QdVrS pediátrica em Portugal.

Perante os resultados obtidos no presente estudo usando as versões portuguesas, é possível constatar que o QoLISSY apresenta boas propriedades psicométricas. De forma geral, o instrumento demonstrou coeficientes de alfa

superiores ao mínimo de .70, mostrando ser um instrumento fiável, e inclusive considerado por alguns autores como plenamente satisfatório (Rowland et al., 1991). Os resultados demonstraram uma concordância fraca entre crianças e adolescentes e os seus pais. As análises de correlação entre as subescalas e a pontuação total do QoLISSY apresentaram correlações moderadas a fortes para as duas versões, indicando boa validade de construto. O DISABKIDS foi o instrumento de avaliação que apresentou correlações mais fortes, positivas e estatisticamente significativas com o QoLISSY, indicando uma boa validade convergente entre estes dois instrumentos. No que diz respeito às análises realizadas entre grupos, constatou-se que as crianças com DHC apresentam pior QdVrS emocional e total em comparação com as crianças com BEI, de acordo com os seus próprios auto-relatos. Já os pais de crianças que atingiram estatura normal percebem uma melhor QdVrS emocional e total em relação a pais de crianças com baixa estatura atual. Adicionalmente, os pais de raparigas reportaram melhor QdVrS no domínio Futuro, comparativamente aos pais de rapazes. Ao contrário do que se esperava, não se observaram diferenças significativas entre crianças/ adolescentes a receber tratamento com HC e sem tratamento.

Relativamente à análise da consistência interna, à semelhança dos resultados obtidos no estudo original (The QoLISSY Group, 2013), verificou-se que a versão portuguesa do QoLISSY apresentou bons valores de consistência interna, não obstante a existência do domínio *efeito nos pais* que apresentou um valor mais baixo (0.69). A confiabilidade de um instrumento pode ser afetada pela variabilidade de respostas aos itens do questionário. Quanto maior a variabilidade, ou seja, se houver heterogeneidade entre as respostas, maior será a probabilidade do instrumento estar a avaliar de forma enviesada e, conseqüentemente, menor será a sua fiabilidade. Outro fator que pode incrementar o erro da medida é a quantidade de itens que medem o mesmo construto. Como possível explicação para a fraca consistência interna, nesta subescala, podemos avançar com a ideia de que este ponto fraco poderá estar relacionado com o conteúdo de um dos itens (o impacto do tratamento nos pais), podendo este item não ter sido respondido pelos cuidadores de crianças que não estão a receber tratamentos. E considerando-se o número de itens do instrumento, tais valores podem ser revertidos com uma amostra maior. No estudo europeu, os valores encontrados para a consistência interna variam entre .82 e .95 relativamente à versão de auto-relato, e entre .83 e .95

na versão de hetero-relato. Resultados similares ao estudo original foram encontrados em estudos realizados por outros países (e.g., EUA), cujos valores variam entre 0.57 e 0.96 na versão de auto-relato, e entre 0.87 e 0.97 na versão de hetero-relato (Bullinger et al., 2015). Ao contrário do estudo original, cujo valor de consistência interna mais baixo é apresentado na dimensão *coping*, na versão de auto-relato, a versão portuguesa apresenta um valor mais baixo na subescala adicional *efeito nos pais* da versão de hetero-relato.

As intercorrelações entre subescalas foram, em geral, mais baixas, em comparação ao estudo original (The European QoLISSY Group, 2013). Através da análise das correlações inter-domínios do QoLISSY, é possível perceber que as maiores correlações ocorreram entre os domínios físico, social e emocional e entre as crenças e o total de dificuldades, em ambas as versões. Relativamente aos três domínios nucleares do QoLISSY, o físico, é constituído por itens relacionados com a limitação imposta pela condição física de BE no dia-a-dia da criança/adolescente; o social está associado à satisfação das crianças com a sua rede social, e o impacto que esta satisfação pode ter na sua condição física; o emocional está relacionado com o que a criança/adolescente sente em relação à sua condição crónica (Sommer et al., 2017).

Ao contrário do que se esperava, as subescalas *coping* e *tratamento* apresentam correlações mais baixas e não significativas em comparação com as restantes. Em relação ao *tratamento*, é certo que quando os questionários foram administrados às crianças a maior parte delas ainda não se encontrava a realizar tratamento, podendo ter conduzido a um enviesamento dos resultados. Por outro lado, os sujeitos que responderam podem ter percebido as questões como intrusivas ou podem não se ter identificado com o conteúdo das mesmas. Relativamente ao *coping*, um estudo anterior apresentou resultados semelhantes não apresentando correlações significativas com nenhum dos outros domínios (Bullinger et al., 2013). De acordo com os estudos, mecanismos de regulação psicológica como o *coping* podem ter um efeito mediador na QdV (Ross et al., 2004). No entanto, é necessária investigação adicional para perceber como é que as crianças e adolescentes com BE se adaptam à sua condição de saúde e como é que esta adaptação tem impacto no seu bem-estar e funcionamento psicológico (Sandberg & Colsman 2005). Contrariamente aos nossos resultados,

Quitmann et al. (2013) chegaram à conclusão que o *coping* estava correlacionado com a QdVrS quando avaliado pelo QoLISSY.

De acordo com a literatura (Bullinger et al., 2006), e confirmando a nossa **primeira hipótese** de trabalho, a concordância entre as respostas nas diferentes subescalas do instrumento demonstram que existem diferenças entre o ponto de vista das crianças e adolescentes e entre os seus cuidadores, principalmente nos domínios não observáveis da QdV (e.g., emocional). Creemens et al. (2006) esclarecem que, de forma geral, os domínios físicos tendem a apresentar um maior grau de concordância do que os subjetivos, como os emocionais ou sociais. Adicionalmente, os cuidadores de crianças com doenças crónicas tendem a relatar a QdV dos seus filhos como pior do que realmente é, principalmente nos domínios emocionais (Bullinger et al., 2006). Constatamos que, em relação às médias dos valores dos domínios do QoLISSY, os cuidadores atribuíram valores ligeiramente inferiores em relação à própria criança/adolescente. Consequentemente, a frequência das experiências de adversidade emocional poderá ter sido sobrestimada pelos pais das crianças e adolescentes com BE. A baixa concordância entre os relatos, que não foi observada em estudos de validação anteriores do QoLISSY, poderá ser consequência da amostra reduzida. De acordo com a literatura, tais diferenças também podem existir porque os cuidadores tendem a perspetivar a QdVrS dos filhos com doença crónica como menor (Vetter, Bridgewater & McGwin 2012). No entanto, Sneeuw et al. (2002) concluíram que os estudos que utilizam amostras inferiores a 30 acabam por ter resultados menos significativos a nível de concordância. Os autores Taylor et al. (2011) defendem que perante uma doença crónica há um forte impacto em toda a família e não apenas na vida da criança, sendo que, mais do que existir concordância entre as respostas é importante analisar as diferenças nas duas visões. Assim, torna-se essencial que, sempre que possível, ambos os relatos sejam considerados, de forma a obter perspetivas diferentes sobre a mesma condição.

Como fora anteriormente mencionado, embora todos os instrumentos da QdVrS adicionais se correlacionassem positivamente com a versão portuguesa do instrumento e, ao contrário de alguns estudos em que o KIDSCREEN demonstra uma boa validade convergente com correlações significativas (Rohenkohl et al., 2015), é necessário destacar que estamos a falar de dois instrumentos que avaliam construtos diferentes. (Silva et al.,

2013). O KIDSCREEN, de natureza genérica, pode negligenciar o impacto do crescimento físico e o desenvolvimento da altura na QdVrS (Bullinger et al., 2009). Este instrumento não é sensível nem permite avaliar especificamente o impacto de uma condição crónica específica na QdV de uma criança. Por outro lado, a forte correlação com o instrumento crónico-genérico (corroboração da nossa **segunda hipótese**), poderá ser justificada pela relevância que as crianças e adolescentes de baixa estatura dão às questões apresentadas. E, igualmente, pela maior atenção disponibilizada pelos cuidadores para questões mais relacionadas com a condição crónica do que a aspetos mais gerais da QdVrS (Upton et al., 2008).

Da análise de correlações entre as subescalas do Questionário de Dificuldades e Capacidades (SDQ) e entre os vários domínios da QdV medidos pelo QoLISSY, verifica-se que quanto menor a QdV física, social ou emocional das crianças e adolescentes, maior é a dificuldade a nível emocional apresentada, incluindo problemas de comportamento e problemas com os colegas. Para as crianças e adolescentes as correlações mais fracas, para além do *coping* e *tratamento*, ocorreram entre os domínios nucleares da QdV e os sintomas emocionais. Analisando o conteúdo das questões que compõem o conteúdo emocional, estas avaliam se o indivíduo deixou de realizar tarefas importantes do seu dia-a-dia como consequência do seu estado emocional. Outra correlação fraca foi verificada entre todos os domínios do instrumento, incluído os adicionais da versão dos pais, e entre o total de dificuldades. Estas questões representam, de uma forma geral, como a criança e os seus cuidadores, percebem o seu estado geral de saúde e como avaliam a sua QdV. Pode-se inferir que tanto as crianças como os seus pais não consideravam que a condição de BE causasse grande incapacidade, no momento da avaliação.

De acordo com alguns autores, a ideia de que uma criança com baixa estatura idiopática ao receber tratamento de HC terá uma melhor QdVrS ou melhor auto-estima nem sempre corresponde à realidade, sendo que de acordo com os seus resultados, o único domínio onde haveria uma maior QdV seria o social (Theunissen et al., 2002). Embora seja certo que uma criança ao receber tratamento tenha maior probabilidade de vir a aumentar a sua altura, é importante destacar que o tratamento nem sempre irá garantir que as crianças obtenham a altura desejada (Sizonenko et al., 2001). No nosso estudo, ao contrário do que se hipotetizava, não existiram diferenças na QdVrS de

crianças com e sem tratamento. Contrariamente, um estudo realizado por Allen (2011) demonstrou que as crianças que receberam tratamento de HC demonstraram uma melhor QdV em relação às crianças que não receberam. Embora o tratamento da injeção cutânea HC seja considerado como o método mais seguro, eficaz e aceite pelos pacientes e pais de crianças e adolescentes com baixa estatura, Rekers-Mombarg et al. (1998) chamam a atenção para o facto de que o tratamento implica a necessidade da toma de injeções diárias e consultas médicas frequentes. Adicionalmente, o tratamento com HC em pacientes com BEI tem demonstrado efeitos reduzidos, pelo que não afeta de forma significativa as competências sociais, auto-estima, percepção da aparência física, personalidade e competências cognitivas (Lee, 2006). Neste sentido, é importante ponderar as vantagens e desvantagens (e.g., dor das injeções diárias) da continuidade dos tratamentos para a QdV destes pacientes, principalmente para aqueles que entretanto atingiram estatura normal (Rekers-Mombarg et al., 1998). Este facto chama a atenção para a importância de se avaliar, em futuras investigações o verdadeiro propósito de um tratamento, e suas implicações para uma criança/adolescente que o procura. É necessário lembrar que, hoje em dia, ser baixo ou alto depende do padrão de medida tomado como comparação e que muita da procura em relação ao tratamento para o crescimento dever-se-à, em parte, à pressão sentida pela sociedade e por ideias geradas pelos estigmas acerca do que será a altura ideal, ou mesmo pelos próprios pais. Neste sentido, é necessário definir até que ponto a BE deve ser considerada um problema na QdV (Benjamin et al., 1984).

De acordo com a nossa **terceira hipótese** seria de esperar que as crianças e adolescentes com DHC reportassem uma melhor QdVrS melhor por comparação às crianças e adolescentes com BEI. Esta hipótese foi confirmada, embora apenas para o domínio emocional e QdVrS total. A diferença significativa na QdV emocional, entre os dois diagnósticos, coloca em causa a adaptação emocional das crianças com DHC à sua condição de saúde. No estudo de Bullinger et al. (2014), também se encontraram diferenças entre os dois diagnósticos, sendo que as crianças/adolescentes com DHC pontuaram um valor inferior no domínio *coping* em comparação às crianças/adolescentes com BEI.

De acordo com Wiklund et al. (1998), a QdV é perspectivada de maneira diferente para os rapazes e raparigas. Contudo, no que diz respeito à diferença entre géneros, a nossa **quinta hipótese** não é corroborada, uma vez que não

existem diferenças estatisticamente significativas auto-relatadas. A doença crónica é uma experiência que pode interferir significativamente com os planos e actividades que dão significado à vida de um indivíduo (Turner & Kelly, 2000). Neste sentido, estes resultados obtidos devem ser considerados com precaução e devem ser investigados futuramente, usando uma amostra maior e mais representativa, pois estes desviam-se da informação encontrada pelos estudos na área da BE, onde é sugerido um maior impacto da BE na vida dos rapazes do que nas raparigas. (Balen, Sinnema, & Geenen, 2015). Ainda assim, a maior QdVrS reportada no domínio futuro, pelos cuidadores, poderá ser explicada pelo facto de os pais não sentirem que a BE das suas filhas é um impedimento para ter uma boa QdV. Adicionalmente, também poderá estar relacionado com o facto de que os rapazes apresentam uma maior probabilidade de vir a desenvolver problemas psicológicos do que as raparigas (Bullinger et al., 2009). De acordo com Lazarus (1966), os rapazes têm maior probabilidade de ativar mecanismos de *coping*, uma vez que tendem a enfrentar mais desafios no dia-a-dia. Em contraste, as raparigas tendem a usar mais estratégias de evitamento (Matud, 2004). Thomsen et al. (2011) salientam que a altura é uma característica bastante apreciada nos primeiros anos de vida, especialmente pelos rapazes. Isto poderá ter mais influência ao nível do sexo masculino, uma vez que os estudos tem sido convergentes na ideia de que o sexo feminino prefere homens mais altos em relação à média populacional (Stulp et al., 2013; Polo et al., 2017). Relativamente aos homens com uma altura mais baixa, está descrito que pode haver alguma inveja em relação aos seus pares com uma altura consideravelmente mais alta (Buunk et al., 2008).

De acordo com a nossa **quarta hipótese**, as análises demonstram que as crianças que atingiram estatura normal reportam melhor QdVrS comparativamente às crianças que têm baixa estatura atual, relatando diferenças significativas no domínio emocional e na QdVrS total. De referir que estes resultados vão de encontro aos encontrados na literatura, segundos os quais os pais reportam uma QdVrS mais baixa para as crianças com uma altura inferior, embora seja no domínio *coping* (Rohenkohl et al., 2015). Bullinger et al. (2017) chegaram à conclusão que os domínios emocional e social eram os reportados como mais comprometidos pelas crianças e pelos seus cuidadores, indo de encontro a estudos anteriores que provaram que a BE está associada a estigmatização e isolamento social, comparativamente aos seus

pares mais altos, podendo causar stress psicológico crónico. Estudos realizados com crianças com doenças crónicas (e.g., doença celíaca) também têm vindo a sugerir que as questões socioemocionais desempenham um papel essencial na sua vida (Chang et al., 2016). É importante destacar que as crianças com menos de 6 anos de idade raramente se sentem mal psicologicamente, sendo que normalmente, as idas frequentes a clínicas não se devem ao desejo dos filhos quererem ser mais altos mas à maior preocupação dos pais em relação ao impacto da sua BE (Stabler et al., 1996). Deste modo, quando uma criança/adolescente pretende alcançar uma certa altura, deve-se primeiro analisar se esse desejo se deve a expectativas irreais, uma vez que, como anteriormente descrito, o tratamento requer muito esforço e a decepção poderá vir a ser maior do que qualquer estigma que a criança possa vir a sofrer. Também é importante realçar que, a forma como os pais pensam em relação à condição de BE pode, ou não, influenciar a QdV dos seus filhos e podendo transmitir os seus próprios receios e preconceitos.

Limitações e Contribuições do Estudo

É importante salientar que o presente estudo apresenta algumas limitações metodológicas que devem ser tidas em consideração na interpretação dos resultados. Em primeiro lugar destaca-se o tamanho da amostra, que não foi suficiente para que cada subgrupo fosse constituído por um mínimo de 30 sujeitos. Consequentemente, os testes paramétricos não puderam ser aplicados, e como alternativa foram utilizados os testes não paramétricos, que não exigem que o tamanho dos subgrupos seja elevado para proceder à comparação das médias. Contudo, são menos potentes, pelo que os resultados obtidos através da realização destes testes estatísticos são menos fiáveis. Também o facto de o estudo ter um desenho transversal (portanto, com uma única observação da criança e do seu respetivo cuidador), impediu a análise da estatilidade temporal (i.e., fiabilidade teste-reteste) do instrumento. Outra limitação metodológica prende-se com a representatividade da amostra, uma vez que não foi possível obter um número equitativo de crianças com características clínicas equivalentes, especialmente no que diz respeito ao diagnóstico e tratamento. Desta forma, a representatividade é colocada em causa, impedindo a generalização das conclusões, exigindo que os resultados sejam lidos com maior precaução.

Como procedimento de recolha de informação foram utilizados

questionários constituídos, maioritariamente, por um conjunto de alternativas de resposta previamente definida. Esta forma de avaliação limita as respostas dadas e conseqüentemente coloca em causa a validade das respostas e dos resultados finais, no sentido em que estes podem não refletir a verdadeira perspectiva dos inquiridos ou podem ser mal interpretados pelos mesmos. Adicionalmente, o número de respostas em branco é mais elevado quando os respondentes preenchem os questionários sozinhos, o que pode também enviesar os resultados do estudo. Outra limitação está associada ao consentimento informado, que, ao exigir uma assinatura, poderá inibir os tutores de responderem e serem sinceros em temáticas tão sensíveis e íntimas quanto as que são apresentadas nos questionários, apesar de ser garantida a confidencialidade dos dados.

Apesar destas limitações, é importante referir que o QoLISSY é uma importante contribuição na investigação da QdVrS pediátrica em Portugal. A versão portuguesa do instrumento poderá vir a contribuir para a tomada de decisão clínica e para futuras investigações com populações pediátricas. Pode ser aplicado por clínicos, investigadores, companhias farmacêuticas, prestadores de cuidados de saúde e agências governamentais, permitindo dar voz às crianças e aos pais nos cuidados de saúde e ser usado em contexto clínico para facilitar a escolha do tratamento mais adequado e entender as necessidades das crianças/adolescentes (The European QoLISSY Group, 2013). Também irá possibilitar a comunicação entre pacientes e médicos, entender o nível da satisfação do paciente e identificar problemas a nível psicológico (Varni et al., 2005). Assim, os questionários QoLISSY poderão ser incorporados nos protocolos de avaliação de rotina dos serviços de saúde portugueses como instrumentos de triagem, auxiliando as decisões clínicas (e.g., tratamento prioritário das crianças e adolescentes que tenham uma QdV diminuída).

Por último, para estudos futuros, seria importante o desenvolvimento de uma próxima fase, correspondente ao estudo de campo das versões de auto e hetero-relato do questionário QoLISSY, através do uso de uma amostra com dimensão maior.

V – Conclusões

Esta investigação procurou analisar as propriedades psicométricas da versão portuguesa do QoLISSY, através da consistência interna, validade de construto, validade convergente, concordância inter-avaliadores e validade de grupos conhecidos, contribuindo para a validação de um instrumento de QdVrS pediátrica inexistente em Portugal. Apesar das suas limitações apontadas anteriormente, consideramos que o nosso trabalho se revela oportuno perante a escassez de instrumentos devidamente validados para avaliação da QdVrS de crianças/adolescentes em Portugal.

Nos últimos anos, inúmeras investigações têm sido efetuadas para demonstrar a necessidade de se estudar os processos envolvidos na QdVrS de crianças e adolescentes com condições crónicas. Para além da adequação do instrumento para a população portuguesa, é necessário que o instrumento obtenha resultados fidedignos para que possam ser utilizados para fins terapêuticos e para estudos comparativos posteriores. Os resultados encontrados no nosso estudo sugerem boas propriedades psicométricas dos questionários QoLISSY, legitimando a sua utilização em contexto clínico e de investigação junto da população portuguesa. Futuramente, será importante expandir os estudos realizados com a versão portuguesa do QoLISSY, recorrendo a amostras maiores e mais representativas da condição de BE com crianças e adolescentes de nacionalidade portuguesa, de forma a melhor compreender os processos de adaptação das crianças e adolescentes portugueses com baixa estatura.

VI – Bibliografia

- Aaronson, N. K. (1988). Quality of life: What is it? How should it be measured? *Oncology*, 2(5), 69-74.
- Allen, D. B. (2011). Lessons learned from the hGH era. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism*, 96(10), 3042-3047. doi:10.1210/jc.2011-1739
- American Psychological Association. (2010). *Ethical principles of psychologists and code of conduct*. Retirado de <http://www.apa.org/ethics/code/principles.pdf>.
- Apter, A., Galatzer, A., Beth-Halachmi, N., & Laron, Z. (1981). Self-image in adolescents with delayed puberty and growth retardation. *Journal of Youth and Adolescence*, 10(6), 501-505.
- Balen, H. V.-V., Geenen, R., Moerbeek, M., Stroop, R., Kamp, G. A., Huisman, J., ... Sinnema, G. (2005). Psychosocial functioning of adolescents with idiopathic short stature or persistent short stature born small for gestational age during three years of combined growth hormone and gonadotropin-releasing hormone agonist treatment. *Hormone Research in Pediatrics*, 64, 77-87. doi:10.1159/000087700
- Balen, H. V.-V., Sinnema, G., & Geenen, R. (2015). Growing up with idiopathic short stature: Psychosocial development and hormone treatment: A critical review. *Archives of Disease in Childhood*, 91, 433-439. doi:10.1136/adc.2005.086942
- Benjamin, M., Muyskens, J., & Saenger, P. (1984). Short children, anxious parents: Is growth hormone the answer?. *The Hastings Center Report*, 14(2), 5-9.
- Brütt, A. L., Sandberg, D. E., Chaplin, J., Wollmann, H., Noeker, M., Kołowska-Häggström, M., & Bullinger, M. (2009). Assessment of health-related quality of life and patient satisfaction in children and adolescents with growth hormone deficiency or idiopathic short stature - Part 1: A critical evaluation of available tools. *Hormone Research in Paediatrics*, 72, 65-73. doi:10.1159/000232158
- Bryant, J., Baxter, L., Cave, C., & Milne, R. (2007). Recombinant growth hormone for idiopathic short stature in children and adolescents. *Cochrane Database of Systematic Reviews*, 18. doi:10.1002/14651858.CD004440.pub2

- Bullinger, M., & Ravens-Sieberer, U. (1995). Health related qol assessment in children: A review of the literature. *Revue Europeenne de Psychologie Appliquee*, 27(S3), 254-268.
- Bullinger, M. (1997). The challenge of cross-cultural quality of life assessment. *Psychology and Health*, 12(6), 815-825.
- Bullinger, M., Schmidt, S., Peterson, C., & Ravens-Sieberer, U. (2006). Quality of life: Evaluation criteria for children with chronic conditions in medical care. *Journal of Public Health*, 14(6), 343-355.
- Bullinger, M., Koltowska-Hägström, M., Sandberg, D., Chaplin, J., Wollmann, H., Noeker, M., & Brütt, A. (2009). Health-related quality of life of children and adolescents with growth hormone deficiency or idiopathic short stature - Part 2: Available results and future directions. *Hormone Research in Paediatrics*, 72, 74-81. doi:10.1159/000232159
- Bullinger, M., Quitmann, J., Power, M., Herdman, M., Mimoun, E., DeBusk, K., ...Chaplin, J. (2013). Assessing the quality of life of health-referred children and adolescents with short stature: Development and psychometric testing of the QoLISSY instrument. *Health and Quality of Life Outcomes*, 11, 76. doi:10.1186/1477-7525-11-76
- Bullinger, M., Chaplin, J. E., DeBusk, K., Feigerlova, E., Herdman, M., Mimoun, E., ...Wollmann, H. (2014). Cross-cultural equivalence of the patient-and-parent-reported quality of life in short stature youth (qolissy) questionnaire. *Hormone Research in Paediatrics*, 82, 18-30. doi:10.1159/000358832
- Bullinger, M., Fox, J., Mauras, N., Newfield, R., Pleil, A., Quitmann, J., ... Sommer, R. (2015). Evaluation of the American-English quality of life in short stature youth (QoLISSY) questionnaire in the United States. *Health and Quality of Life Outcomes*, 13, 43. doi:10.1186/s12955-015-0236-2
- Buunk, A. P., Park, J. H., Zurriaga, R., Klavina, L., Massar, K. (2008). Height predicts jealousy differently for men and women. *Evolution and Human Behavior*, 29, 133-139. doi:10.1016/j.evolhumbehav.2007.11.006
- Carona, C., Silva, N., & Moreira, H. (2014). Applying a developmental approach to quality of life assessment in children and adolescents with

- psychological disorders: Challenges and guidelines. *Expert Review of Pharmacoeconomics & Outcomes Research*, 15, 1-24. doi:10.1586/14737167.2015.972377
- Carona, C., Silva, N., Moreira, H., Canavarro, M. C., & Bullinger, M. (2015). Does the small fit them all? The utility of Disabkids-10 Index for the assessment of pediatric health-related quality of life across age-groups, genders, and informants. *Journal of Child Health Care*, 19, 466-477. doi:10.1177/1367493514522867
- Cerveira, J. A. (2003). Influência da qualidade de vida na ocorrência da doença cárie em pré-escolares (Tese de mestrado). Escola de Enfermagem, Ribeirão Preto. [São Paulo].
- Chang, M. A., Yeaman, J., Phillips, L., Kratz, A., Yang, L. J., Carlozzi, N. E. (2016). Health-related quality of life components in children with neonatal brachial plexus palsy: A qualitative study. *PM & R*, 9(4), 383-391.
- Cremmeens, J., & Eiser, C., & Blades, M. (2006). Characteristics of health related self-report measures for children aged three to eight years: a review of the literature. *Quality of Life Research*, 15, 739-754. doi:10.1007/s11136-005-4184-x
- Davis, E., Waters, E., Mackinnon, A., Reddihough, D., Graham, H. K., Mehmet-Radji, O., & Boyd, R. (2006). Paediatric quality of life instruments: A review of the impact of the conceptual framework on outcomes. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 48(4), 311-318.
- Day, H., & Jankey, S. G. (1996). Lessons from literature: Towards a holistic model of quality of life. In R. Renwick, I. Brown, & M. Nagler (Eds.), *Quality of life in health promotion and rehabilitation: Conceptual approaches, issues and applications* (pp. 39-50). Thousand Oaks, CA: Sage Publications.
- De Civita, M., Regier, D., Alamgir, A. H., Anis, A. H., Fitzgerald, M. J., & Marra, C. A. (2005). Evaluating health-related quality-of-life studies in paediatric populations: Some conceptual methodological and developmental considerations and recent applications. *Pharmacoeconomics*, 23(7), 659-685
- Dorado, J. P. H. (2016). Talla baja: Tratamiento con hormona de crecimiento humana recombinante. *Revista de la Sociedad Boliviana de Pediatría*,

55(1), 23-28.

- Eiser, C. (1997). Children's quality of life measures. *Archives of Disease in Childhood*, 77(4), 350-354.
- Eiser, C., & Morse, R. (2001a). Can parents rate their child's health-related quality of life?: Results of a systematic review. *Quality of Life Research*, 10, 347-357. doi:10.1023/A:1012253723272
- Eiser, C. & Morse, R. (2001b). Quality-of-life measures in chronic diseases of childhood. *Health Technology Assessment*, 5(4), 1-157.
- Fayers, P. M., & Machin, D. (2000). *Quality of life: Assessment, analysis and interpretation*. England: John Wiley & Sons, Ltd.
- Fleitlich, B., Loureiro, M., Fonseca, A., & Gaspar, F. (2005). *Questionário de capacidades e dificuldades (SDQ-Por)* [Strengths and Difficulties Questionnaire, Portuguese Version]. Retirado de www.sdqinfo.org
- Gaspar, T., Matos, M., Pais, R., José, L., Leal, I., & Ferreira, A. (2009). Health-related quality of life in children and adolescents and associated factors. *Journal of Cognitive and Behavioral Psychotherapies*, 9(1), 33-48.
- Goodman, R. (1997). The strenghts and difficulties questionnaire: A research note. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 38(5), 581-568.
- Guillemin, F., Bombardier, C., & Beaton, D. (1993). Cross-cultural adaptation of health-related quality of life measures: Literature review and proposed guidelines. *Journal of Clinical Epidemiology*, 46(12), 1417-1432.
- Han, K., Lee, P., Lee, S., e Park, E. (2003). Factors influencing quality of life in people with chronic illness in Korea. *Journal of Nursing Scholarship*, 35(2), 139-144.
- Harding, L. (2001). Children's quality of life assessments: A review of generic and health related quality of life measures completed by children and adolescents. *Clinical & Psychotherapy*, 8, 79-96. doi:10.1002/cpp.275.
- Holmes, C. S., Hayford, J. T., & Thomfson, R. G. (1982). Parent's and teacher's differing views of short children's behaviour. *Child: Care, Health and Development*, 8(6), 327-336.
- Jenney, M. E. M., & Campbell, S. (1997). Measuring quality of life. *Archives of Disease in Childhood*, 84, 347-354. doi:10.1136/adc.77.4.347
- Juniper, E. F., Guyatt, G. H., Feeny, D. H., Ferrie, P. J., Griffith, L. E.,

- Townsend, M. (1996). Measuring quality of life in children with asthma. *Quality of Life Research*, 5(1), 35-46.
- Kelly, B., & Turner, J. (2000). Emotional dimensions of chronic disease. *Western Journal of Medicine*, 172(2), 124-128.
- Kilian, R., Matschinger, H., e Angermeyer, M. C. (2001). The impact of chronic illness on subjective quality of life: A comparison between general population and hospital inpatients with somatic and psychiatric diseases. *Clinical Psychology and Psychotherapy*, 8, 206-213. doi:10.1002/cpp.277.
- Koch, T. (2000). Life quality vs the 'quality of life': Assumptions underlying prospective quality of life instruments in health care planning. *Social Science & Medicine*, 51, 419-427. doi:10.1016/S0277-9536(99)00474-8
- Lazarus, R. S. (1966). Psychological stress and the coping process. *The American Journal of Psychology*, 83(4), 634-637.
- Lee, M. M. (2006). Idiopathic short stature. *The New England Journal of Medicine*, 354, 2576-2582. doi:10.1056/NEJMcp060828.
- Liu, L. Y., King, B. A., & Craiglow, B. G. (2016). Health-related quality of life (HRQoL) among patients with alopecia areata (AA): A systematic review. *Journal of the American Academy of Dermatology* 75(4), 806-812.
- Matos, M. G., Gaspar, T., & Simões, C. (2012). Qualidade de vida relacionada à saúde de crianças e adolescentes portugueses. *Psicologia: Reflexão e Crítica*, 25(2), 230-237.
- Matud, M. P. (2004) Gender differences in stress and coping styles. *Personality and Individual Differences*, 37(7), 1401-1415.
- Matza, L. S., Swensen, A. R., Flood, E. M., Secnik, K., & Leidy, N. K. (2004). Assessment of health-related quality of life in children: A review of conceptual, methodological, and regulatory issues. *Value in Health Journal*, 7,79-92. doi:10.1111/j.1524-4733.2004.71273.x
- Meyer-Bahlburg, H. F. L. (1990). Short stature: Psychological issues. In F. Lifshitz (Ed.). *Pediatric endocrinology: A clinical guide* (2nded.)(pp. 173-196). New York: Marcel Dekker Publishers.
- Minayo, M. C. S., Hartz, Z. M. A., & Buss, P. M. (2000). Quality of life and health: A necessary debate. *Ciência e Saúde Coletiva*, 5(1), 7-18.
- Money, J., Lewis, V. G., & Bobrow, N. A. (1977). Idiopathic pubertal delay

- beyond age fifteen: Psychological study of twelve boys. *Adolescence*, 12(45), 1-11.
- Mortágua, A. A. P. (2010). A percepção da qualidade de vida da criança/adolescente em contexto de acolhimento temporário (Tese de mestrado). Escola de Psicologia, Minho.
- Pais-Ribeiro, J. (1994). A importância da qualidade de vida para a psicologia da saúde. *Análise Psicológica*, 2-3(12), 179-191.
- Pereira, E. F., Teixeira, C. S., & Santos, A. (2012). Qualidade de vida: Abordagens, conceitos e avaliação. *Revista Brasileira de Educação Física e Esporte*, 26, 241-250. doi:10.1590/S1807-55092012000200007
- Polo, P., Fernandez, A., Muñoz-Reyes, J. A., Dufey, M., & Buunk, A. P. (2017). Intrasexual competition and height in adolescents and adults. *Evolutionary Psychology*, 16(1), 2-8.
- Quitmann, J., Rohenkohl, A., Specht, A., Petersen-Ewert, Schillmoller, Z., Bullinger, M., & The QoLISSY Study Group (2013). Coping strategies of children and adolescents with clinically diagnosed short stature. *Journal of Child and Family Studies*, 24(3), 703-714.
- Ravens-Sieberer, U., Gosch, A., Abel, T., Auquier, P., Bellach, B. M., Bruil, J., ... & European KIDSCREEN Group (2001). Quality of life in children and adolescents: A European public health perspective. *Sozial-und Praventivmedizin*, 46(5), 294-302.
- Ravens-Sieberer, U., Erhart, M., Wille, N., Wetzel, R., Nickel, J., & Bullinger, M. (2006). Generic health-related quality-of-life assessment in children and adolescents: Methodological considerations. *Pharmacoeconomics*, 24 (12), 1199-1220.
- Rekers-Mombarg, L. T., Busschbach, J. J., Massa, G. G., Dicke, J., & Wit, J. M. (1998). Quality of life of young adults with idiopathic short stature: Effect of growth hormone treatment. *Acta Paediatrica*, 87(8), 865-870.
- Rohenkohl, A., Stalman, S., Kamp, G., Bullinger, M., & Quitmann, J. (2015). Psychometric performance of the quality of life in short stature youth (qolissy) questionnaire in the Netherlands. *European Journal of Pediatrics*, 175, 347-354. doi:10.1007/s00431-015-2656-8
- Renwick, R. and Brown, I. (1996). The Centre for Health Promotion's conceptual approach to quality of life: Being, Belonging, and

- Becoming. In Renwick, R., Brown, I. and Nagler, M. (Eds), *Quality of life in health promotion and rehabilitation: conceptual approaches, issues and applications* (pp. 75-86). Thousand Oaks, CA: Sage Publications.
- Rosenfeld, R. G. (2005). The molecular basis of idiopathic short stature. *Journal of the Growth Hormone Research Society and the International IGF Research Society*, 15, 3-5. doi:10.1016/j.ghir.2005.06.014
- Ross, J. L., Sandberg, D. E., Rose, S. R., Leschek, E. W., Baron, J., Chipman, J. J., ... Cutler, G. B. (2004). Psychological adaptation in children with idiopathic short stature treated with growth hormone or placebo. *The Journal of Clinical Endocrinology and Metabolism*, 89, 4873-4878. doi:10.1210/jc.2004-0791
- Rowland, D., Arkkelin, D., & Crisler, L. (1991). Computer-based data analysis: Using SPSS in the social and behavioral sciences. *Computers and Education*, 19, 395. doi:10.1016/0360-1315(92)90087-L
- Sandberg, D. E., Brook, A. E., & Campos, S. P. (1994). Short stature: A psychosocial burden requiring growth hormone therapy? *Pediatrics*, 94(6), 832-840.
- Sandberg, D. E. (1996). Short stature: Intellectual and behavioral aspects. In Lifshitz F. (Ed.), *Pediatric Endocrinology* (3rd ed., 149-162). New York: Marcel Dekker.
- Sandberg, D. E., & Voss, L. D. (2002). The psychosocial consequences of short stature: A review of the evidence. *Best Practice & Research Clinical Endocrinology and Metabolism*, 16, 449-463. doi:10.1053/beem.2002.0211
- Sandberg, D. E., Bukowski, W. M., Fung, C. M., & Noll, R. B. (2004). Height and social adjustment: Are extremes a cause for concern and action? *Pediatrics*, 114, 744-750. doi:10.1542/peds.2003-1169-L
- Sandberg, D. E., & Colsman, M. (2005). Growth hormone for short stature: Status of the quality of life rationale. *Hormone Research Paediatrics*, 63, 275-283. doi:10.1159/000086593
- Schlarmann, J., Metzger-Blau, S., & Schnepf, W. (2008). The use of health related quality of life (HRQOL) in children and adolescents as an outcome criterion to evaluate family oriented support for young carers

- in Germany: An integrative review of the literature. *BMC Public Health*, 8, 414-432. doi:10.1186/1471-2458-8-414.
- Schmidt, S., & Bullinger, M. (2003). Current issues in cross-cultural quality of life instrument development. *Archives of Physiology & Medical Rehabilitation*, 84(2), 29-34. doi:10.1053/apmr.2003.50244
- Seidl, E. M., & Zannon, C. (2004). Qualidade de vida e saúde: Aspectos conceituais e metodológicos. *Cadernos de Saúde Pública*, 20, 580-588. doi:10.1590/S0102-311X2004000200027
- Silva, N., Bullinger, M., Quitmann, J., Ravens-Sieberer, U., RohenKohl, A., & The QoLISSY Group (2013). HrQoL of European children and adolescents with short stature as assessed with generic (KIDSCREEN) and chronic-generic (DISABKIDS) instruments. *Expert Review of Pharmacoeconomics & Outcomes Research*, 13(6), 817-827.
- Silva, N., Bullinger, M., Sommer, R., Rohenkohl, A., Witt, A., & Quitmann, J. (2017). Children's psychosocial functioning and parents' quality of life in paediatric short stature: The mediating role of caregiving stress. *Clinical Psychology & Psychotherapy*, 24, 1-12. doi:10.1002/cpp.2146
- Sizonenko, P. C., Clayton, P. E., Cohen, P., Hintz, R. L., Tanaka, T., & Laron, Z. (2001). Diagnosis and management of growth hormone deficiency in childhood and adolescence – Part 1: Diagnosis of growth hormone deficiency. *Growth Hormone & IGF Research*, 11, 137-165. doi:10.1054/ghir.2001.0203
- Skevington, S. M., Sartorius, N., & Amir, M. (2004). Developing methods for assessing quality of life in different cultural settings. The history of the QHOQOL instruments. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, 39(1), 1-8.
- Sneeuw, K. C. A., Sprangers, M. A. G., & Aaronson, N. K. (2002). The role of health care providers and significant others in evaluating the quality of life of patients with chronic disease. *Journal of Clinical Epidemiology*, 55, 1130–1143. doi:10.1016/S0895-4356(02)00479-1
- Sommer, R., Bullinger, M., Rohenkohl, A., Quitmann, J., & Brütt, A. L. (2014). Linking a short-stature specific health-related quality of life measure (qolissy) to the international classification of functioning – children and youth (ICF-CY). *Disability and Rehabilitation*, 37(5),

439-446.

- Sommer, R., Bullinger, M., Chaplin, J., Do, J. K., Power, M., Pleil, A., & Quitmann, J. (2017). Experiencing health-related quality of life in paediatric short stature – A cross-cultural analysis of statements from patients and parents. *Clinical Psychology Psychotherapy*, 24(6), 1370-1376.
- Sommer, R., Blömeke, J., Bullinger, M., & Quitmann, J. (2018). The psychometric evaluation of the quality of life in short stature youth (qolissy) instrument for German children born small for gestational age. *Journal of Endocrinological Investigation*, 1-7. Advance online publication. doi:10.1007/s40618-018-0850-z
- Spieth, L. E., & Harris, C. V. (1996). Assessment of health-related quality of life in children and adolescents: An integrative review. *Journal of Pediatric Psychology*, 21, 175-193. doi:10.1093/jpepsy/21.2.175
- Spieth, L. E. (2001). Generic health-related quality of life measures for children and adolescents. In H. M. Koot & J. L. Wallander (Eds.), *Quality of life in child and adolescent illness: Concepts, methods and findings* (pp. 49-88). New York: Brunner-Routledge.
- Sprangers, M. A. & Aaronson, N. K. (1992). The role of health care providers and significant others in evaluating the quality of life of patients with chronic disease. *Journal of Clinical Epidemiology*, 45(7), 743-760.
- Stabler, B., Clopper, R. R., Siegel, P. T., Nicholas, L. M., Silva, S. G., Tancer, M. E., & Underwood, L. E. (1996). Links between growth hormone deficiency, adaptation and social phobia. *Hormone Research*, 45, 30-33. doi:10.1159/000184755
- Steinhausen, H. C., & Stahnke, N. (1976). Psychoendocrinological studies in dwarfed children and adolescents. *Archives of Disease in Childhood*, 51, 778-783. doi:10.1136/adc.51.10.778
- Stephen, M. D., Varning, W., Limbers, C. A., Yafi, M., Heptulla, R. A., Renukuntler, V. S., ... Brosnan, P. G. (2011). Health-related quality of life and cognitive functioning in pediatric short stature: Comparison of growth-hormone-naïve, growth-hormone-treated, and healthy samples. *European Journal of Pediatrics*, 170(3), 351-358.
- Stulp, G., Buunk, A. P., Pollet, T. V. (2013). Women want taller men more than men want shorter women. *Personality and Individual Differences*, 54(8), 877-883.

- Tanaka, T., Cohen, P., Clayton, P., Laron, Z., Hintz, R., & Sizonenko, P. (2002). Diagnosis and management of growth hormone deficiency in childhood and adolescence – Part 2: Growth hormone treatment in growth hormone deficient children. *Growth Hormone & IGF Research*, *12*, 323-341. doi:10.1016/S1096-6374(02)00045-X
- The European DISABKIDS Group (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Handbook Lengerich: Pabst Science Publishers.
- The European QoLISSY Group. (2013). *Quality of life in short stature youth: The QoLISSY questionnaire user's manual*. Lengerich: Pabst Science Publishers.
- The KIDSCREEN Group Europe (2006). *The KIDSCREEN Questionnaires – Quality of Life questionnaires for children and adolescents*. Handbook Lengerich: Pabst Science Publishers.
- Theunissen, N. C. M., Kamp, G. A., Koopman, H. M., Zwiderman, K. A. H., Vogels, T., & Wit, J.-M. (2002). Quality of life and self-esteem in children treated for idiopathic short stature. *The Journal of Pediatrics*, *140*, 507-515. doi:10.1067/mpd.2002.123766
- Thomsen, L., Frankenhuis, W. E., Ingold-Smith, M., & Carey, S. (2011). Big and mighty: preverbal infants mentally represent social dominance. *Science*, *331*(6016), 477-480.
- Upton, P., Lawford, J., & Eiser, C. (2008). Parent-child agreement across child health-related quality of life instruments: A review of the literature. *Quality of Life Research*, *17*(6), 895-913.
- Varni, J. W., Burwinkle, T. M., & Lane, M. M. (2005). Health-related quality of life measurement in pediatric clinical practice: An appraisal and precept for future research and application. *Health and Quality of Life Outcomes*, *3*, 34. doi:10.1186/1477-7525-3-34
- Vetter, T. R., Bridgewater, C. L., & McGwin, Jr. (2012). An observational study of patient versus parental perception of health related quality of life in children and adolescent with a chronic pain condition: Who should the clinician believe?. *Health and Quality of Life Outcomes*, *10*, 85. doi:10.1186/1477-7525-10-85
- Voss, L. D., & Mulligan, J. (2000). Bullying in school: Are short pupils at risk?. *British Medical Journal*, *320*, 612-613. doi:10.1136/bmj.320.7235.612

- Voss, L. D. (2006). Is short stature a problem? The psychological view. *European Journal of Endocrinology*, 155(1), 39-45.
- Wallander, J. L., Schmitt, M., & Koot, H. M. (2001). Quality of life in children and adolescents: Issues, instruments and applications. *Journal of Clinical Psychology*, 57(4), 571-585.
- Wheeler, P. G., Bresnahan, K., Shephard, B. A., Lau, J., & Balk, E. M. (2004). Short stature and functional impairment. *Archives of Pediatrics & Adolescent Medicine*, 158(3), 236-243.
- WHOQOL Group (1995). The World Health Organization quality of life assessment (WHOQOL): Position paper from the World Health Organization. *Social Science & Medicine*, 41 (10), 1403-1409.
- Wiebe, S., Guyatt, G., Weaver, B., Matijevic, S., & Sidwell, C. (2003). Comparative responsiveness of generic and specific quality-of-life instruments. *Journal of Clinical Epidemiology*, 56(1), 52-60.
- Wiklund, I., Earling, A., & Albertsson-Wikland, K. (1998). Critical review of measurement issues in quality of life assessment for children with growth problems. In Drotar D. (Ed.), *Measuring health-related quality of life in children and adolescents*. Mahwah: Lawrence Erlbaum Associates.
- Wit, J. M., Reiter, E. O., Ross, J. L., Saenger, P. H., Savage, M. O., Rogol, A. D., & Cohen, P. (2008). Idiopathic short stature: Management and growth hormone treatment. *Growth Hormone & IGF Research*, 18, 111-135. doi:10.1016/j.ghir.2007.11.003
- World Health Organization (1993). *Measurement of quality of life in children: Report of a WHO/IACAPAP Working Party*. Retirado de <http://sid.usal.es/idocs/F8/FDO7263/663.pdf>.
- Zeferino, A. M. B., Filho, A. A. B., Bettiol, H., & Barbieri, M. A. (2003). Monitoring growth. *Jornal de Pediatria*, 1, 23-32. doi:10.2223/JPED.995