



Teresa Paula Gameiro Pompeu Mendes

A FAMÍLIA NO CONTEXTO DA EPILEPSIA PEDIÁTRICA: RESULTADOS E PROCESSOS DE ADAPTAÇÃO DE CRIANÇAS COM EPILEPSIA E SEUS PAIS

Tese de Doutoramento do Programa Inter-Universitário em Psicologia,
Especialidade: Psicologia Clínica – Área temática: Psicologia da Família e Intervenção Familiar,
da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e da Faculdade
de Psicologia da Universidade de Lisboa, orientada pela Professora Doutora Carla Alexandra Mesquita
Crespo e pela Professora Doutora Joan Kessner Austin,
e apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

Março 2018



UNIVERSIDADE DE COIMBRA

Teresa Paula Gameiro Pompeu Mendes

**A FAMÍLIA NO CONTEXTO DA EPILEPSIA PEDIÁTRICA:
RESULTADOS E PROCESSOS DE ADAPTAÇÃO DE CRIANÇAS
COM EPILEPSIA E SEUS PAIS**

Tese de Doutoramento do Programa Inter-Universitário em Psicologia,
Especialidade: Psicologia Clínica – Área temática: Psicologia da Família e Intervenção Familiar,
da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e da Faculdade de
Psicologia da Universidade de Lisboa, orientada pela Professora Doutora Carla Alexandra Mesquita Crespo e pela
Professora Doutora Joan Kessner Austin,
e apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

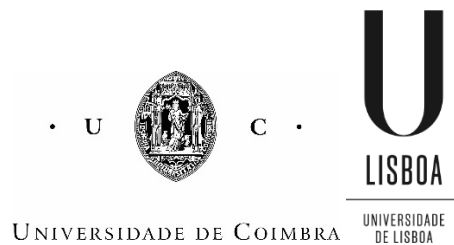
Março 2018



UNIVERSIDADE DE COIMBRA

| | |
|---------------------------------------|---|
| Título | A família no contexto da epilepsia pediátrica: Resultados e processos de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais |
| Title | The family within the context of pediatric epilepsy: Adaptation processes and outcomes in children with epilepsy and their parents |
| Autor | Teresa Paula Gameiro Pompeu Mendes |
| Orientação científica | Carla Alexandra Mesquita Crespo Professora Associada na Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Lisboa, Portugal Joan Kessner Austin Emeritus Professor at the Indiana University School of Nursing, Indianapolis, United States of America |
| Domínio científico | Psicologia, Especialidade: Psicologia Clínica |
| Área temática | Psicologia da Família e Intervenção Familiar |
| Instituição de acolhimento | Linha de investigação “Relações, Desenvolvimento & Saúde” do Centro de Investigação em Neuropsicologia e Intervenções Cognitivo-Comportamentais (Unidade I&D) da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra |
| Instituição que confere o grau | Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra |

Tese de Doutoramento do Programa Inter-Universitário em Psicologia, Especialidade: Psicologia Clínica – Área temática: Psicologia da Família e Intervenção Familiar, da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, e da Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, orientada pela Professora Doutora Carla Alexandra Mesquita Crespo e pela Professora Doutora Joan Kessner Austin, e apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra.



O projeto de investigação foi apoiado por uma Bolsa de Doutoramento concedida pela
Fundação para a Ciência e Tecnologia (SFRH/BD/86337/2012)

FCT Fundação
para a Ciência
e a Tecnologia

Dedico este trabalho

aos meus pais... as minhas raízes,
ao Cláudio...juntos somos tronco,
e aos nossos três filhos, Mariana, Lourenço e Martinha...os nossos ramos.

Agradecimentos

O projeto que agora se finaliza resulta de um longo caminho, iniciado há sete anos, enquanto aluna da 2ª edição do Programa Inter-Universitário de Doutoramento em Psicologia, Especialidade: Psicologia Clínica –Área temática: Psicologia da Família e Intervenção Familiar. Neste caminho de aprendiz de investigadora tive oportunidade de contactar e conviver com várias pessoas que, de formas muito distintas mas significativas, com o seu incentivo, partilha, conhecimento e experiência, em diferentes momentos, contribuíram para que este projeto passasse do campo das intenções para a realidade da produção científica. Correndo o risco da erosão do tempo ter contaminado as memórias e o peso dos merecidos tributos a realizar, é chegado o momento de manifestar o meu muito obrigado àqueles que fizeram parte deste percurso.

O meu primeiro agradecimento vai para a minha orientadora, a Professora Doutora Carla Crespo, que me guiou nas várias etapas deste projeto, inspirou nas tomadas de decisão sucessivas, deu amparo nos momentos de maior confusão e desgaste, respeitou a minha autonomia e iniciativa, incentivou a realização de apostas arriscadas, bem como o aceitar dos respetivos resultados, e ainda assim teimou em levar os frutos do projeto sempre mais além. Estou-lhe grata por constituir para mim uma referência na área da investigação em Psicologia, pelo nível de exigência que sempre primou, pela pertinência das questões colocadas, pelo realismo das recomendações realizadas, pelas aprendizagens proporcionadas e sobretudo, pela sua disponibilidade e empenho nas revisões dos sucessivas versões dos trabalhos efetuados. Permitiu-me perceber que em ciência o sucesso é fruto de muito, muito trabalho, em co-construção, ainda que a solidão da produção científica muitas vezes possa constrianger o alento do caminho dos investigadores.

To Professor Joan Austin, a pioneer in the field of knowledge regarding families within the context of pediatric epilepsy, I must thank for accepting to be my co-advisor. I feel very honored for having had Prof. Austin's inspiration and advice at important steps of this project, grateful for her attentive reviewing of the scientific manuscripts and for infusing my work with confidence.

Às quatro unidades hospitalares envolvidas – Hospital Pediátrico do Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, EPE; Centro Hospitalar Leiria-Pombal, EPE; Hospital Distrital de Santarém, EPE e Hospital Garcia de Orta, EPE – agradeço o facto de terem viabilizado as condições para a concretização deste projeto. Uma palavra de apreço e reconhecimento às equipas clínicas do Centro de Desenvolvimento da Criança Luís Borges do Hospital Pediátrico do Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra – (Dra. Conceição Robalo, Dra. Cristina

Pereira, Dra. Isabel Fineza, Dra. Mónica Vasconcelos, Dra. Alexandra Pedruco, Dra. Cláudia Alfaiate, e enfermeiras Fátima Martins, Andreia Matos, Mónica e Maria José); do Centro de Desenvolvimento Torrado da Silva, do Hospital Garcia de Orta (Dr. José Paulo Monteiro; Dra. Maria José Fonseca, Dra. Laura Lourenço, Dra. Lurdes Ventosa, Dra. Ana Filipa Lopes), das consultas externas do Serviço de Pediatria do Centro Hospitalar Leiria-Pombal (Dra. Margarida Agostinho, Dr. Pascoal Moleiro e equipa de enfermagem das consultas externas do Serviço de Pediatria), pelo apoio na viabilização da recolha da amostra da epilepsia pediátrica. Um agradecimento muito especial à Dra. Conceição Robalo (CHUC), ao Dr. José Paulo Monteiro (HGO) e à Dra. Margarida Agostinho (CHLP) pelo tempo e empenho que dedicaram no preenchimento das fichas de caracterização clínica da epilepsia, pelas oportunidades de aprendizagem proporcionadas e pelo interesse demonstrado. Agradeço ainda à Dra. Aldina Lopes, Dra. Inês Sanmarful e restante equipa médica, de enfermagem e de secretariado clínico das consultas externas do Serviço de Pediatria do Hospital Distrital de Santarém EPE, pelo apoio demonstrado ao nível da recolha da amostra nas áreas da obesidade, asma e diabetes pediátricas.

À Ana Filipa Lopes agradeço o facto de ter constituído exemplo de investigação e de reconhecimento da (neuro)psicologia na área da epilepsia pediátrica em Portugal. Estou-lhe grata por ter confiado no meu projeto, incentivado a sua concretização e agilizado as oportunidades de contacto e divulgação do mesmo junto das equipas clínicas do Centro de Desenvolvimento da Criança do Hospital Garcia de Orta, e do Centro de Desenvolvimento da Criança do Hospital Pediátrico de Coimbra. Agradeço-lhe ainda pela revisão atenta de um dos pontos do primeiro capítulo da tese.

À Joana Ferraz agradeço a preciosa ajuda na recolha de amostra e na inserção dos dados nas bases, bem como a amizade e bons momentos passados, também nas viagens até Almada.

À Adélia Santos agradeço a prontidão e paciência com que respondeu aos meus emails e imprimiu as centenas e centenas de páginas de artigos e protocolos de avaliação que lhe pedi.

Agradeço à Sofia Neves os recursos partilhados na área da intervenção psicológica na epilepsia, a troca de experiências e saberes, e o incentivo demonstrado.

Agradeço aos professores e colegas da 2ª edição do Programa Inter-Universitário de Doutoramento em Psicologia Clínica, a diversidade de aprendizagens, experiências, perspetivas, interações e conhecimentos que potenciaram e propocionaram.

Ao Professor João Marôco agradeço as recomendações e aprendizagens proporcionadas ao nível da análise e tratamento de dados quantitativos por recurso às análises de equações estruturais.

To all researchers worldwide who have inspired me through their research paths and scientific outputs, and with whom I had the opportunity to exchange emails, ideias and ask for

resources, particularly to Professor Bram Buunk, Professor Avani Modi, Professor Mark Ferro, Professor Katherine Knafl and Professor Roos Rodenburg.

Agradeço também a todos os colegas da Linha de Investigação “Relações, Desenvolvimento & Saúde”, e em especial à sua coordenadora, a Professora Doutora Cristina Canavarro, o apoio logístico proporcionado, e por constituírem um exemplo de excelência na investigação psicológica a nível nacional e internacional. Um agradecimento também especial à Susana Santos, pela partilha de saberes e experiências, e pela companhia em Philadelphia.

Às minhas colegas e supervisores do curso de formação em Intervenção Sistémica e Familiar, Professora Doutora Joana Sequeira e Dr. José Garrucho, e ainda à Professora Doutora Isabel Alberto, agradeço pelo apoio e incentivo demonstrado e pelas aprendizagens proporcionadas. Agradeço ainda às Professoras Doutoras Ana Paula Relvas, Madalena Alarcão e Madalena Carvalho os primeiros contactos e aprendizagens nos mundos da Psicologia da Família e da Sistémica e o gosto que infundiram em mim para aprofundar esses caminhos de compreensão e intervenção.

À direção, pessoal docente e não docente do Externato Liceal Albergaria dos Doze a minha gratidão pelo apoio demonstrado ao longo dos anos de colaboração conjunta.

Aos professores da Escola Superior de Saúde do Instituto Politécnico de Leiria agradeço o incentivo que deram à fase inicial do projeto, e a todos os alunos, que de forma generosa, se disponibilizaram a ajudar na recolha da amostra.

Agradeço à Fundação para a Ciência e Tecnologia o financiamento do meu projeto de investigação, e que constitui um motor importante para o levar a bom porto.

A todos os meus amigos a quem, devido ao peso dos compromissos académicos, profissionais e familiares dos últimos anos, não consegui dedicar o tempo que mereciam, mas que ainda assim insistem em povoar a minha vida, o meu muito obrigado.

À Teresa Serra, por estar lá sempre quando é preciso, pelas partilhas, pelo alento, pelas palavras sábias, por me ajudar a perceber melhor os desafios de (con)viver com a epilepsia pediátrica, e por ter acreditado, um grande, grande obrigado.

À minha família mais próxima— os meus pais Laurinda e Jorge, a minha irmã Carla, o meu cunhado Bruce, e minha sobrinha Chloé, a minha cunhada Lília, os meus sogros Adelina e Isidoro, a (também minha) avó (grande) Maria— agradeço pelo “trabalho de equipa”, por todo o apoio e carinho, e por me terem ajudado a tornar a vida dos meus três filhos mais rica nas minhas ausências, deixando-me prosseguir, mais tranquila, nos meus objetivos académicos e profissionais. Agradeço em particular aos meus pais, por serem exemplo de dedicação e apoio incondicional. Agradeço ainda ao meu Padrinho Fernando, aos meus tios-avós, tios, primos e primas (meus e do Cláudio), o carinho e confiança que sempre demonstraram. Ao meu tio Silvino agradeço pela inspiração, exemplo e incentivo na carreira de investigação. Uma nota

muito especial para aqueles que nos últimos anos partiram, mas que ficarão para sempre nos nossos corações: primo Helder Mendes, padrinho Inácio Costa e avó Maria Gameiro.

Ao Cláudio, pela entreatura e companheirismo na aventura diária que é sermos família numerosa, por estar lá sempre para resolver o “impossível”, por ser, tantas vezes, o meu “fio de terra”, e por encher a vida dos nossos filhos de brincadeira e novidades.

Aos nossos três filhos, Mariana, Lourenço e Martinha, que têm (nascido e) crescido com o projeto, agradeço-lhes do fundo do coração o facto de infundirem os meus/nossos dias de significado, de amor, de vontade de dar “o melhor de mim” e de lutar por um amanhã melhor, mesmo no meio do cansaço, agitação e correria que implicam o nosso quotidiano.

As minhas últimas palavras de agradecimento vão para todas as famílias que de forma generosa participaram nesta investigação, dando um pouco do seu tempo, partilhando as suas perspetivas, dúvidas e necessidades. Agradeço-lhes ainda por serem exemplo de luta, dedicação aos filhos, e pela vontade de superação perante a adversidade da doença. Espero que este trabalho possa contribuir para compreender e divulgar melhor uma parte dos seus desafios e da importância dos recursos familiares nessa superação. Um abraço muito especial ao Miguel e à Paula, ao Tiago e à Teresa, bem como às meninas (grandes) Cassandra e Mariana.

I Índice

| | |
|---|-----------|
| Índice de quadros e tabelas..... | 23 |
| Índice de figuras | 25 |
| Lista de abreviaturas e acrónimos..... | 27 |
| Resumo..... | 1 |
| Nota introdutória..... | 9 |
| CAPÍTULO I ENQUADRAMENTO TEÓRICO-CONCEPTUAL..... | 13 |
| 1. Epilepsia(s) em idade pediátrica: Aspetos médicos | 15 |
| 1.1 Conceitos gerais de definição e diagnóstico | 15 |
| 1.2 Dados de epidemiologia | 17 |
| 1.3 Classificação das crises, das epilepsias e das síndromes epiléticas | 18 |
| 1.3.1. Tipos de crises epiléticas..... | 18 |
| 1.3.2. Tipos de epilepsias e síndromes epiléticas..... | 21 |
| 1.4 Etiologia | 22 |
| 1.5 Comorbilidades | 23 |
| 1.6 Tratamento médico | 25 |
| 1.7 Prognóstico e perfis de evolução da doença..... | 26 |
| 2 Epilepsia: Aspetos socio-históricos..... | 28 |
| 2.1 Epilepsia ao longo da história..... | 28 |
| 2.2 Estigma social em relação à epilepsia..... | 29 |
| 3 Compreender a adaptação da criança e seus pais no contexto da epilepsia pediátrica: Integração teórico-conceptual..... | 33 |
| 3.1 Grandes referenciais teórico-conceptuais | 33 |
| 3.1.1 Psicologia da Família | 33 |
| 3.1.2 Psicologia Pediátrica | 35 |
| 3.2 A epilepsia conceptualizada como uma condição crónica de saúde pediátrica | 36 |
| 3.3 Conceito de adaptação..... | 37 |
| 3.4 Família e adaptação no contexto da epilepsia..... | 39 |
| 3.5 Modelos conceptuais de adaptação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas | 40 |
| 3.5.1 Questões gerais..... | 40 |
| 3.5.2 Modelo socioecológico de adaptação e mudança | 41 |
| 4 Resultados e fatores de influência na adaptação de crianças com epilepsia e seus pais | 46 |
| 4.1 Resultados de adaptação: Breve caracterização e principais indicadores | 46 |
| 4.1.1 Adaptação individual das crianças | 46 |

| | | |
|------------|---|-----------|
| 4.1.2 | Adaptação individual dos pais..... | 48 |
| 4.2 | Fatores de influência na adaptação de crianças com epilepsia e seus pais | 49 |
| 4.2.1 | Sistema familiar..... | 49 |
| 4.2.1.1 | Funcionamento familiar global no contexto geral..... | 51 |
| 4.2.1.1.1 | Coesão familiar..... | 51 |
| 4.2.1.1.2 | Rituais familiares..... | 52 |
| 4.2.1.2 | Funcionamento familiar global no contexto das CCSP..... | 54 |
| 4.2.1.2.1 | Gestão familiar da CCSP..... | 54 |
| 4.2.1.3 | Nível socioeconómico da família..... | 57 |
| 4.2.2 | Subsistema parental..... | 58 |
| 4.2.2.1 | Competência parental..... | 58 |
| 4.2.3 | Indivíduos..... | 60 |
| 4.2.3.1 | Crianças..... | 60 |
| 4.2.3.1.1 | Perceção de estigma..... | 60 |
| 4.2.3.1.2 | Grupo etário..... | 62 |
| 4.2.3.2 | Pais..... | 62 |
| 4.2.3.2.1 | Perceção de estigma..... | 62 |
| 4.2.3.2.2 | Orientação para a comparação social..... | 64 |
| 4.2.4 | Fatores clínicos: Epilepsia e respetivo tratamento..... | 65 |
| 4.2.4.1 | Gravidade clínica..... | 66 |
| 4.2.4.2 | Controlo clínico das crises..... | 67 |
| 4.2.4.3 | Tempo desde o diagnóstico..... | 68 |
| 5 | Lacunas na investigação da adaptação de crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica..... | 70 |
| 5.1 | Plano conceptual..... | 70 |
| 5.1.1 | Referenciais teórico-conceituais..... | 70 |
| 5.1.2 | Epilepsia enquanto condição crónica de saúde pediátrica: A importância dos estudos comparativos com outras condições de saúde pediátricas..... | 70 |
| 5.1.3 | Concetualização das variáveis familiares na investigação da adaptação na epilepsia pediátrica..... | 71 |
| 5.1.4 | Temas e conteúdos relevantes na adaptação de crianças e pais..... | 72 |
| 5.2 | Plano metodológico..... | 73 |
| 5.2.1 | Tipo de questões de investigação..... | 73 |
| 5.2.2 | Avaliação das variáveis familiares..... | 74 |
| 5.2.3 | Caraterização das variáveis clínicas e sociodemográficas das amostras..... | 74 |
| 5.2.4 | Tipo de indicadores de adaptação utilizados..... | 75 |
| 5.2.5 | Auto e hetero-relatos..... | 76 |

| | |
|--|------------|
| 5.2.6 Interdependência dos dados diádicos..... | 76 |
| CAPÍTULO II ENQUADRAMENTO METODOLÓGICO..... | 79 |
| 1 Apresentação do projeto de investigação..... | 81 |
| 2 Objetivos..... | 82 |
| 2.1 Objetivos gerais..... | 82 |
| 2.2 Objetivos específicos..... | 82 |
| 3 Opções metodológicas..... | 84 |
| 3.1 Desenho de investigação e respetivas fases..... | 84 |
| 3.2 Participantes e procedimentos de recolha de amostra..... | 85 |
| 4 Variáveis e métodos de recolha de informação..... | 91 |
| 4.1 Variáveis sociodemográficas e clínicas..... | 92 |
| 4.1.1 Características sociodemográficas..... | 92 |
| 4.1.2 Variáveis clínicas..... | 96 |
| 4.2 Variáveis familiares..... | 97 |
| 4.2.1 Funcionamento familiar global no contexto geral..... | 97 |
| 4.2.1.1 Coesão familiar..... | 97 |
| 4.2.1.2 Significado dos rituais familiares..... | 97 |
| 4.2.2 Funcionamento familiar global no contexto de CCSP..... | 98 |
| 4.2.2.1 Gestão familiar da condição crónica de saúde..... | 98 |
| 4.3 Variáveis parentais..... | 100 |
| 4.3.1 Competência parental..... | 100 |
| 4.4 Variáveis individuais..... | 101 |
| 4.4.1 Perceção de estigma (versões <i>criança</i> e <i>pais</i>)..... | 101 |
| 4.4.2 Orientação para a comparação social..... | 102 |
| 4.4.3 Neuroticismo..... | 103 |
| 4.5 Indicadores de adaptação individual..... | 104 |
| 4.5.1 Indicadores de adaptação individual de pais..... | 104 |
| 4.5.1.1 Sintomas ansiosos e depressivos..... | 104 |
| 4.5.1.2 Qualidade de vida..... | 105 |
| 4.5.2 Indicadores de adaptação individual de crianças..... | 105 |
| 4.5.2.1 Qualidade de vida relacionada com a saúde genérica (QdVRS) (versões auto e hetero-relato)..... | 105 |
| 5 Considerações éticas..... | 108 |
| 6 Principais opções de análise dados..... | 111 |
| 6.1 Análise de Equações Estruturais como técnica preferencial de análise de dados..... | 111 |

| | | |
|--|---|------------|
| 6.2 | Análise dos mecanismos de mediação e de moderação | 112 |
| 6.3 | O Actor-Partner interdependence Model | 113 |
| CAPÍTULO III CONTRIBUTOS EMPÍRICOS E DE REVISÃO | | 115 |
| Estudo I | Adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica: Revisão empírico-conceitual..... | 119 |
| Estudo II | Social comparison in parents of children with chronic conditions: Results from the Portuguese version of the Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure | 149 |
| Estudo III | Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family's condition management | 167 |
| Estudo IV | Family cohesion, stigma and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents | 195 |
| Estudo V | Family rituals in pediatric epilepsy: Links to parental competence and adaptation | 219 |
| Estudo VI | “The psychological costs of comparisons”: Parents’ social comparison moderates the links between family management of epilepsy and children’s outcomes | 247 |
| CAPÍTULO IV DISCUSSÃO INTEGRADA DOS RESULTADOS..... | | 281 |
| I | Síntese e discussão integrada dos principais resultados..... | 283 |
| 1.1 | Estado da arte: Adaptação de crianças com epilepsia e seus pais com base no modelo socioecológico de adaptação e mudança..... | 283 |
| 1.2 | A orientação para a comparação social no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas: Adaptação da Iowa-Netherlands Social Comparison Measure (INCOM)..... | 285 |
| 1.3 | Epilepsia e outras condições crónicas de saúde pediátricas: Dados comparativos de funcionamento familiar e adaptação de pais e filhos | 287 |
| 1.4 | Importância dos recursos familiares para a adaptação de crianças e pais | 289 |
| 2 | Síntese dos principais contributos da presente investigação | 304 |
| 3 | Limitações..... | 308 |
| 4 | Implicações para a investigação futura..... | 311 |
| 5 | Implicações para a intervenção clínica | 315 |
| 5.1 | Papel dos psicólogos nos serviços de atendimento especializados na epilepsia pediátrica..... | 315 |
| 5.2 | Novos caminhos para as intervenções com as famílias no contexto da epilepsia pediátrica..... | 317 |

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS..... 323

Índice de quadros e tabelas

| | |
|---|-----|
| CAPÍTULO I ENQUADRAMENTO TEÓRICO-CONCEPTUAL | 13 |
| Quadro 1 - Tipos de crises epiléticas e respetiva caracterização..... | 20 |
| Quadro 2 - Exemplos de síndromes epiléticas com distintas gravidades..... | 21 |
| | |
| CAPÍTULO II ENQUADRAMENTO METODOLÓGICO | 79 |
| Quadro 1 - Objetivos específicos da investigação..... | 83 |
| Quadro 2 - Critérios de inclusão/exclusão e descrição das amostras utilizadas em cada estudo empírico da Fase II do projeto de investigação | 86 |
| Quadro 3 - Critérios de inclusão/exclusão e descrição das amostras utilizadas em cada estudo empírico da Fase III do projeto de investigação..... | 87 |
| Quadro 4 - Variáveis, instrumentos e informantes utilizados por estudo..... | 93 |
| Quadro 5 - Valores de alfa de Cronbach para cada subescala dos instrumentos utilizados nas Fases II e III do projeto de investigação..... | 94 |
| | |
| CAPÍTULO III CONTRIBUTOS EMPÍRICOS E DE REVISÃO | 115 |
| Estudo II | 149 |
| Table 1 - Descriptive statistics of the items of the INCOM..... | 158 |
| Table 2 - Goodness of fit indices and standardized factorial weights of the items of the INCOM in each factorial model..... | 160 |
| Table 3 - Descriptive statistics and Pearson correlations between social comparison orientation and other variables..... | 161 |
| | |
| Estudo III | 167 |
| Table 1 - Sociodemographic and clinical characteristics of parents and their children with chronic conditions | 175 |
| Table 2 - Between-group comparisons and associations among study variables..... | 181 |

| | |
|--|-----|
| Table 3. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediational model | 183 |
| Estudo IV..... | 195 |
| Table 1. Sociodemographic and clinical characteristics of the sample..... | 206 |
| Table 2. Descriptive statistics and matrix of intercorrelations among study variables for children and parents..... | 208 |
| Table 3. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediational model | 209 |
| Estudo V..... | 219 |
| Table 1. Descriptive statistics, matrix of intercorrelations among study variables and Cronbach's α values..... | 231 |
| Table 2. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediation model..... | 233 |
| Estudo VI..... | 247 |
| Table 1 - Sociodemographic and clinical characteristics of the sample..... | 258 |
| Table 2 - Descriptive statistics and matrix of intercorrelations between study variables | 259 |
| Table 3 - Hierarchical multiple regressions: Predicting children's perceived stigma and children's HRQoL from parents' perceptions of child daily life and of family life difficulties | 260 |

Índice de figuras

| | |
|--|-----|
| CAPÍTULO I ENQUADRAMENTO TEÓRICO-CONCEPTUAL | 13 |
| Figura 1 - Crises e imitadores de crises (adapt. de Institute of Medicine, 2012) | 16 |
| Figura 2 –Níveis sistémicos do modelo socioecológico de adaptação e mudança (adapt. de Kazak et al, 2003) | 43 |
| CAPÍTULO III CONTRIBUTOS EMPÍRICOS E DE REVISÃO | 115 |
| Estudo I | 119 |
| Figura 1 - Níveis sistémicos contemplados na presente revisão com base no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak et al., 2009) | 126 |
| Estudo III | 167 |
| Figure 1 - Path analysis diagram testing the direct and indirect effects of family cohesion on children’s and parents’ adaptation..... | 182 |
| Estudo IV..... | 195 |
| Figure 1. Path model testing the direct and indirect effects, via perceived stigma, between family cohesion and QoL for both children and parents (actor and partner effects)..... | 210 |
| Estudo V..... | 219 |
| Figure 1. Mediation model (Trimmed, non-significant paths are not represented)..... | 232 |
| Estudo VI..... | 247 |
| Figure 1. The moderating effect of parents’ SCO on the links between parental perceptions of child daily life and children’s perceived stigma | 262 |
| Figure 2. The moderating effect of parents’ SCO on the links between parental perceptions of family life difficulties and children’s perceived stigma | 262 |
| Figure 3. The moderating effect of parents’ SCO on the links between parental perceptions of child daily life and children’s HRQoL..... | 263 |
| Figure 4. The moderating effect of parents’ SCO on the links between parental perceptions of family life difficulties and children’s HRQoL..... | 263 |

Lista de abreviaturas e acrónimos

| | |
|----------|--|
| APIM | Actor-Partner interdependence Model |
| APIMeM | Actor Partner Interdependence Mediation Model |
| AEE | Análise de equações estruturais |
| APA | American Psychological Association |
| CSS | Child Stigma Scale |
| CCSP | Condições crónicas de saúde pediátricas |
| CFA | Confirmatory factor analysis |
| DCGM | Disabkids Chronic Generic Measure |
| EEG | Eletroencefalograma |
| EPQ | Eysenck Personality Questionnaire |
| FES | Family Environment Scale |
| FRQ | Family Ritual Questionnaire |
| FaMM | Family Management Measure |
| HADS | Hospital Anxiety and Depression Scale |
| CHLP-EPE | Centro Hospitalar Leiria-Pombal, Entidade Pública Empresarial |
| CHUC-EPE | Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial |
| HDS-EPE | Hospital Distrital de Santarém, Entidade Pública Empresarial |
| HGO-EPE | Hospital Garcia de Orta, Entidade Pública Empresarial |
| ICD | International Classification of Diseases |
| ILAE | International League Against Epilepsy |
| IBE | International Bureau for Epilepsy |
| INCOM | Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure |
| NSE | Nível socioeconómico |
| OCS | Orientação para a comparações social |
| PHDA | Perturbação de hiperatividade e défice de atenção |
| PSOC | Parenting Sense of Competence |
| PSS | Parent Stigma Scale |
| QdV | Qualidade de Vida |
| QdVRS | Qualidade de Vida relacionada com a Saúde |
| WHO | World Health Organization |

Resumo

Introdução: Nos países ocidentais, a epilepsia afeta entre 0.5 a 1% das crianças, acarretando desafios acrescidos não só para a criança, como para toda a família. Viver com a epilepsia significa ter de lidar com a imprevisibilidade das manifestações e curso de uma doença que permanece invisível a maior parte do tempo, e que continua associada a um forte estigma social. Crianças com epilepsia e seus pais apresentam um risco acrescido de problemas de adaptação, porém, os resultados no contexto desta condição crónica apresentam uma grande variabilidade. Ancorada no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, Rourke & Navsaria, 2009), a presente investigação teve como objetivo compreender a adaptação de crianças com epilepsia e os seus pais. Especificamente, propuseram-se os seguintes objetivos: (1) organizar a diversidade de resultados de investigação em torno da adaptação de crianças com epilepsia e seus pais a partir do referencial socioecológico; (2) analisar as características psicométricas da versão portuguesa da Iowa-Netherlands Social Comparison Scale (INCOM); (3) comparar famílias no contexto da epilepsia com famílias no contexto de outras condições crónicas de saúde pediátricas, ao nível da adaptação individual e de variáveis do funcionamento familiar; (4) analisar o papel de fatores familiares, parentais, individuais e clínicos, nos resultados da adaptação das crianças e dos seus pais, bem como examinar mecanismos explicativos específicos através dos quais estes fatores exercem a sua influência.

Metodologia: O desenho metodológico da investigação integrou uma fase preparatória, da qual resultou um estudo de revisão de literatura, seguida de duas fases empíricas quantitativas independentes, de natureza transversal, das quais resultaram cinco estudos empíricos. Mais especificamente, a segunda fase incluiu, para além famílias de crianças com epilepsia, famílias com filhos com outras condições crónicas pediátricas (asma, diabetes, obesidade) e centrou-se na adaptação de um instrumento e na realização do estudo comparativo, tendo como participantes pais de crianças com condições crónicas pediátricas, mais especificamente 301 pais no Estudo II e 256 pais no Estudo III. A terceira fase, no contexto específico da epilepsia, integrou 192 díades crianças/pais no Estudo IV, 200 pais no Estudo V e 201 díades de crianças/pais no Estudo VI. Além de fornecerem dados sociodemográficos e clínicos, os pais preencheram questionários para avaliar a orientação para a comparação social, competência parental, gestão familiar da condição de saúde, significado dos rituais familiares, sintomatologia ansiosa/depressiva, qualidade de vida (QdV) e qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVRS) das crianças. Adicionalmente, crianças e pais avaliaram a coesão familiar e a

percepção de estigma e as crianças reportaram sobre a sua QdVRS. Os médicos neuropediatras caracterizaram a epilepsia e respetiva gravidade.

Resultados: Apesar do reconhecimento crescente da importância da família, constatou-se uma escassez de estudos de análise do papel dos fatores familiares globais, e respetivos mecanismos de influência, na adaptação das crianças com epilepsia e seus pais (Estudo I). Os resultados dos estudos psicométricos da INCOM apoiaram uma solução fatorial unidimensional que se revelou fiável e válida na avaliação da orientação para a comparação social em pais de crianças com condições crónicas pediátricas (Estudo II). No Estudo III, famílias no contexto da epilepsia, diabetes e obesidade reportaram níveis superiores de dificuldades na gestão familiar da condição de saúde, relativamente a famílias com crianças com asma; dos quatro grupos clínicos, foram as crianças com diabetes e obesidade que apresentaram níveis mais baixos de QdVRS; dimensões específicas da gestão familiar da condição de saúde foram identificadas como mecanismos explicativos das associações entre coesão familiar e indicadores de adaptação de crianças e pais. No Estudo IV, verificou-se que a coesão familiar estava positivamente associada à QdVRS/QdV, diretamente para crianças com epilepsia e seus pais, e indiretamente para as crianças, por via das associações negativas com a percepção de estigma; a nível diádico, percepções de coesão dos pais estavam positivamente associadas à QdVRS das crianças. No Estudo V, o significado dos rituais familiares estava direta e indiretamente associado a níveis inferiores de sintomatologia depressiva e/ou ansiosa e superiores de QdV dos pais, através da competência parental. Os resultados dos Estudos IV e V revelaram-se válidos, independentemente do grupo etário da criança, da gravidade clínica da epilepsia e do nível socioeconómico. No Estudo VI, níveis superiores de dificuldades na gestão familiar da epilepsia e percepções mais negativas sobre o impacto da doença na vida das crianças estavam associados a níveis superiores de estigma e pior QdVRS nas crianças, mas somente nas famílias cujos pais reportavam níveis mais elevados de orientação para a comparação social.

Conclusão: Esta investigação permitiu identificar fatores passíveis de promover ou comprometer a adaptação no contexto da epilepsia pediátrica. Os resultados apoiam o uso da INCOM, alertando para a necessidade de estudos futuros sobre o papel da comparação social para a adaptação de pais e de filhos no contexto das condições crónicas pediátricas. Os resultados do estudo comparativo desafiaram o facto de a epilepsia, ser, por vezes, considerada a condição com impacto mais negativo na vida das crianças e suas famílias, reforçando a necessidade de estudos adicionais para avaliar as especificidades e aspetos comuns às várias condições de saúde. Destacou-se a importância de empreender esforços sistemáticos de avaliação e intervenção psicológica relativamente a fatores potencialmente modificáveis com

relevância para a adaptação, mais concretamente fatores familiares (coesão familiar, significado dos rituais familiares, gestão familiar da condição de saúde), parentais (competência parental) e individuais (estigma social, orientação para a comparação social). Globalmente, os resultados apoiam a relevância de modelos de prestação de cuidados centrados na família na área da epilepsia pediátrica.

Palavras chave: epilepsia pediátrica; condição crónica de saúde; adaptação; fatores familiares (coesão, rituais, gestão da condição); competência parental; estigma social; comparação social.

Abstract

Introduction: Epilepsy affects between 0.5 and 1% of the children in western countries. Dealing with epilepsy poses significant challenges not only for the child, but for the entire family system. Living with epilepsy means dealing with the unpredictable nature and course of a disease that remains largely invisible, and that is loaded with social stigma. Children with epilepsy and their parents are at increased risk for adaptation problems, however, the literature reveals great variability in terms of children's and parents' adaptation outcomes. Grounded in the socioecological model of adaptation and challenge (Kazak, Rourke & Navsaria, 2009), the current research project aims at understanding the adaptation of children with epilepsy and that of their parents. Specifically, the following aims were outlined: (1) organizing the diversity of findings in this area of research, by applying the socioecological framework to the context of pediatric epilepsy; (2) examining the psychometric proprieties of the Portuguese version of the lowa-Netherlands Social Comparison Scale (INCOM); (3) comparing families in the context of epilepsy with families in the context of other pediatric chronic conditions, at the level of children's and parents' individual adaptation outcomes and family functioning variables; (4) analyzing the role of family, parental, individual and clinical factors in the adaptation outcomes of children and parents, as well as examining specific mechanisms through which these factors might operate.

Methods: Research design comprised a preparatory phase that led to a review study, followed by two independent quantitative phases of cross-sectional nature, from which originated five empirical studies. Along with families of children with epilepsy, research phase two included families of children with other chronic pediatric conditions (asthma, diabetes and obesity) and comprised both a cross-cultural adaptation study of a psychological measure and a comparative study; participants were parents of children with chronic pediatric conditions, more specifically, 301 parents in Study II and 256 parents in Study III. Research phase three included exclusively families of children with epilepsy, and comprised 192 dyads of children/parents (Study IV), 200 parents (Study V) and 201 dyads of children/parents (study VI). Parents filled out questionnaires regarding sociodemographic and clinical data, as well as self-report measures to assess social comparison orientation, parental competence, family management of the chronic pediatric condition, family ritual meaning, anxiety and depressive symptoms, quality of life (QoL) and of their children's health-related quality of life (HRQoL). Additionally, both children and parents reported on family cohesion and perceptions of stigma, and children on their HRQoL. Neurologists assessed clinical variables of epilepsy.

Results: Despite the increasing importance attributed to the family system, there is a scarcity of research examining the role of whole-family factors in the adaptation outcomes of children with epilepsy and their parents, and the mechanisms through which these factors operate (Study I). The results of the psychometric studies of the INCOM support a unidimensional factorial solution, that was considered reliable and valid in the assessment of the social comparison orientation of parents of children with chronic pediatric conditions (Study II). Families in the context of epilepsy, diabetes and obesity reported higher family management difficulties of the chronic pediatric condition, comparatively to families of children with asthma; out of the four clinical groups under comparison, parents of children with diabetes and obesity reported the lowest levels of their children's' HRQoL; specific dimensions of the family's condition management were identified as mechanisms through which family cohesion was linked to adaptation outcomes of both children and parents (Study III). In Study IV, family cohesion was positively linked to HRQoL/QoL outcomes, directly for children with epilepsy and their parents, and indirectly for children only, via negative links with perceived stigma; at the dyadic level, parents' perceptions of family cohesion were positively associated with children's' HRQoL. In Study V, family ritual meaning was directly and indirectly associated with parents' lower levels of depressive and anxious symptoms, and with higher levels of QoL, through parental competence. Studies IV and V results were valid across children's age group, epilepsy severity and family socioeconomic level. In study VI, results showed that when parents perceived higher difficulties managing their child's epilepsy and/or reported that their child's life was more affected by the condition, their children reported higher perceived stigma and worse HRQoL but only when parents had a high social comparison orientation.

Conclusion: This research enabled the identification of factors amenable to promote or impair the individual adaptation processes of children and parents within the context of pediatric epilepsy. The results support the use of the INCOM, and stress the importance of developing future studies to clarify the role of social comparison in the adaptation processes of both parents and children within the context of pediatric chronic conditions. The results of the comparative study challenge the commonly spread idea that epilepsy is the most detrimental condition for the lives of children and their families, and stress the need of additional research to assess the specificities and communalities of epilepsy in relation to other pediatric chronic conditions. The results emphasize the importance of psychologists routinely directing assessment and intervention efforts to factors relevant to the adaptation processes of children and parents, and that are amenable to modification, more precisely family (cohesion, ritual meaning, condition management); parental (competence) and individual factors (social stigma,

social comparison orientation). Overall, the results highlight the relevance of adopting a family-centered model of care in the area of pediatric epilepsy.

Keywords: pediatric epilepsy, chronic pediatric health conditions; family factors (cohesion, rituals, condition management); parental competence; social stigma; social comparison.

Nota introdutória

A epilepsia constitui a doença neurológica mais comum em idade pediátrica, com taxas de prevalência nos países ocidentais que variam entre 0.5% a 1% (Berg, Jallon et al., 2013). A epilepsia predispõe as crianças à experiência de crises epiléticas espontâneas e recorrentes, que podem variar de curtas ausências, a convulsões tónico-clónicas prolongadas (Fisher et al., 2017). Independentemente das características clínicas específicas, uma condição de saúde como a epilepsia tem impacto não só na criança, mas em todo o sistema familiar.

(Con)Viver com a epilepsia significa ter de lidar com a natureza imprevisível das manifestações e curso da doença; com o risco acrescido de traumatismos físicos no caso da ocorrência de uma crise; com uma doença que permanece invisível a maior parte do tempo, mas que representa ameaças permanentes em vários domínios de vida da criança (académico, comportamental, emocional, social) e ainda com o estigma social a que esta condição se encontra historicamente associada (Lambert et al., 2014; Austin et al., 2015). As últimas décadas têm observado avanços significativos ao nível do controlo clínico das crises, sobretudo nos países ocidentais industrializados. Ainda assim, crianças com epilepsia e respetivos pais continuam a evidenciar um risco acrescido de dificuldades de adaptação, tais como indicados por níveis inferiores de qualidade de vida e maior prevalência de sintomas depressivos e ansiosos (Ferro et al., 2009; Jones et al., 2016). Ser pai de uma criança com epilepsia reveste-se, assim, de desafios particulares. Os pais estão na linha da frente da gestão diária da doença e constituem elementos-chave para a compreensão da epilepsia pelas crianças e para a forma como lidam com esta condição, e também eles evidenciam um risco acrescido de dificuldades na adaptação.

Na literatura atual sobre os aspetos psicossociais da epilepsia pediátrica, existem lacunas importantes ao nível da compreensão da adaptação de pais e filhos. Por exemplo, registam-se poucos estudos comparativos que avaliem a existência de diferenças ao nível de indicadores de adaptação individual ou da qualidade do funcionamento familiar, entre famílias no contexto da epilepsia e de outras condições crónicas de saúde, passíveis de informar a identificação de populações pediátricas em risco acrescido, bem como de clarificar especificidades e comunalidades em diferentes condições crónicas de saúde. Constata-se ainda uma escassez de investigação a examinar mecanismos específicos de influência na adaptação das crianças com epilepsia, e respetivos pais. Identificar os mecanismos de atuação de fatores de influência que colocam as crianças com epilepsia e seus pais em risco acrescido de dificuldades de adaptação, como também de fatores que protegem os indivíduos em contexto de adversidade, viabiliza quer a identificação precoce das famílias em risco, quer o fornecimento de pistas empíricas para a

estruturação de programas de prevenção e de intervenção mais eficazes com populações pediátricas (Carona, 2013; Rolland & Walsh, 2006).

Ao longo das últimas décadas, a investigação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas mudou de uma perspetiva centrada nos défices, para uma perspetiva que enfatiza a importância de serem identificados recursos familiares, passíveis de promover a adaptação individual e que são suscetíveis de modificação (Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009; Rolland & Walsh, 2006). Apesar do reconhecimento da importância da família na adaptação e desenvolvimento das crianças em geral, e no contexto de uma condição crónica de saúde, o papel dos fatores familiares globais nos resultados de adaptação individual dos membros da família no contexto da epilepsia pediátrica ainda não foi claramente mapeado.

É neste contexto que o presente trabalho foi concetualizado, procurando constituir-se como um contributo para clarificar e compreender o papel do contexto familiar na adaptação individual de crianças com epilepsia e seus pais. A investigação baseou-se nos referenciais teórico-conceptuais da Psicologia da Família e da Psicologia Pediátrica e, especificamente, no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak et al., 2009). Ancorados neste modelo, procurámos aprofundar a compreensão do papel de fatores situados em diferentes níveis sistémicos (familiares, parentais, individuais e clínicos), nos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, e clarificar respetivos processos de influência, com destaque para os fatores familiares.

A presente tese é apresentada sobre a forma de compilação de um conjunto de seis estudos, um de revisão de literatura e cinco empíricos, que foram planificados de modo a dar resposta a lacunas identificadas na revisão da literatura. Dos seis estudos apresentados, um encontra-se publicado numa revista nacional (Estudo II), quatro encontram-se publicados em revistas internacionais (Estudos III, IV, IV, VI) e um encontra-se submetido para publicação (Estudo II).

A tese encontra-se organizada em quatro Capítulos. O **Capítulo I, Enquadramento teórico-conceptual** encontra-se dividido em cinco pontos principais. No ponto 1 o foco é colocado nos aspetos médicos da epilepsia, tais como questões de diagnóstico, epidemiologia, classificação, etiologia, comorbilidades, tratamento médicos e prognóstico e evolução da doença. No ponto 2 abordam-se aspetos socio-históricos em torno da doença, com destaque para o conceito de estigma social em relação à epilepsia. No ponto seguinte, damos início à abordagem psicológica da adaptação das crianças com epilepsia e suas famílias, sendo realizada uma incursão pelos referenciais teórico-conceptuais eleitos para viabilizar a leitura e compreensão da diversidade dos resultados de adaptação -Psicologia da Família e Psicologia Pediátrica- e do modelo que assumiu particular relevância no desenvolvimento da nossa investigação, o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009). No ponto 4 são

apresentadas e analisadas as evidências empíricas atuais relativamente aos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e de seus pais, bem com os fatores de influência dos mesmos. A revisão foi centrada em dois microssistemas específicos: a família e a condição crónica de saúde - epilepsia. Finaliza-se o Capítulo I da presente tese com uma síntese das lacunas mais significativas na literatura atual sobre adaptação no contexto da epilepsia pediátrica, tanto no plano conceptual, como metodológico, que orientaram a definição dos objetivos da presente investigação.

No **Capítulo II, Enquadramento Metodológico** é realizada uma caracterização geral do projeto de investigação em termos dos objetivos, opções metodológicas subjacentes à concretização dos mesmos (desenho de investigação e respetivas fases, participantes, procedimentos de recolha de amostra, métodos de recolha de informação, análise de dados), bem como das questões éticas que foram tomadas em consideração nas várias fases da investigação.

O **Capítulo III, Contributos empíricos e de revisão**, é composto por seis secções que correspondem ao estudo de revisão de literatura e aos cinco estudos empíricos. O **Estudo I** *Adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica: Revisão empírico-conceptual* teve por objetivo organizar os principais resultados de investigação na área da adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, por aplicação do referencial socioecológico de adaptação e mudança. O **Estudo II** *Social comparison in parents of children with chronic conditions: Results from the Portuguese version of the Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure* apresenta os resultados do estudo das propriedades psicométricas da versão portuguesa da Iowa Netherlands Social Comparison Measure (INCOM) (validade fatorial, fiabilidade, e validade convergente) em duas amostras de pais de crianças com condições crónicas de saúde pediátricas. O **Estudo III**: *Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family's condition management* pretendeu comparar a adaptação das famílias com crianças com epilepsia, relativamente a famílias com outras condições crónicas de saúde (asma, diabetes e obesidade) ao nível de indicadores de adaptação individual de crianças e de pais e de variáveis do funcionamento familiar global, bem como examinar os efeitos diretos e indiretos da coesão familiar, nos indicadores de adaptação de pais e crianças, por via das associações com duas dimensões da gestão familiar de uma condição saúde pediátrica (mutualidade parental e dificuldades na vida familiar). O **Estudo IV** *Family cohesion, stigma and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents* procurou analisar as associações individuais e diádicas entre coesão familiar, estigma social e qualidade de vida, em díades de crianças com epilepsia e um dos pais, bem como testar o papel mediador do estigma social em relação à epilepsia nas associações individuais e diádicas entre coesão familiar e QdV. O **Estudo V** *Family rituals in pediatric epilepsy: Links to parental competence and adaptation* centrou-se na análise dos efeitos diretos e indiretos do significado dos rituais

familiares na adaptação de pais, por via das associações com duas dimensões da competência parental, eficácia e satisfação parental. **O Estudo VI** *The psychological costs of comparisons: Parents' social comparisons moderates the links between family management of epilepsy and children's outcomes* testou o papel moderador da orientação para a comparação social dos pais de crianças com epilepsia nas associações entre as percepções parentais de gestão familiar da epilepsia e dois indicadores de adaptação das crianças (percepção de estigma e QDVRS).

O Capítulo IV, Discussão Integrada dos Resultados, inicia-se com uma síntese e discussão dos principais resultados dos seis estudos apresentados. De seguida, refletimos sobre os principais contributos e limitações da presente investigação. Por fim, apresentamos uma reflexão sobre as implicações do presente trabalho, quer para a investigação, quer para a prática clínica. Destaca-se o contributo dos resultados da presente investigação para estruturação de intervenções psicológicas com famílias em risco no contexto da epilepsia pediátrica, reforçando a importância do papel dos psicólogos nas equipas multidisciplinares de atendimento especializado a crianças com epilepsia e dos modelos de prestação de cuidados de saúde centrados na família.

CAPÍTULO I

ENQUADRAMENTO
TEÓRICO-CONCEPTUAL

I. Epilepsia(s) em idade pediátrica: Aspetos médicos

I.1 Conceitos gerais de definição e diagnóstico

A epilepsia é uma doença neurológica caracterizada por uma predisposição permanente ou duradoura para a ocorrência de crises epilépticas espontâneas, que afeta pessoas de todas as idades (Fisher, Cross, D'Souza, et al., 2017; Institute of medicine, 2012). Enquanto condição neurológica, não se trata de uma doença singular ou uniforme (England, Liverman, Schultz, & Strawbridge, 2012; Institute of Medicine, 2012). A epilepsia congrega um largo espectro de condições e apresentações, com características muito distintas em termos de idade de início, semiológica clínica, etiologia e prognóstico, bem como nível de impacto no indivíduo e respetiva família (Fisher et al., 2005; Panayiotopoulos, 2007).

Durante as crises epilépticas existe uma descarga neuronal anómala (excessiva ou síncrona) de um grupo ou da totalidade das células cerebrais, acompanhada de uma alteração súbita, involuntária e limitada no tempo, de uma ou mais funções cerebrais, das quais poderão resultar alterações da consciência, movimentos involuntários, alterações da sensibilidade, percepção, comportamento ou funções autonómicas (Berg et al., 2010; Panayiotopoulos, 2007). A semiologia das crises é influenciada por fatores como a maturação cerebral, a localização do foco e a difusão da crise (Fisher et al., 2005). A definição de epilepsia tem sofrido alterações ao longo dos tempos. De acordo com as recomendações recentes da *International League Against Epilepsy* (ILAE), a epilepsia é considerada uma doença do cérebro definida por qualquer uma das seguintes condições: 1) ocorrência de pelo menos duas crises epilépticas espontâneas (i.e., não provocadas por nenhuma causa imediata identificada), separadas por um período mínimo de 24 horas; 2) ocorrência de uma crise epiléptica não provocada, e uma probabilidade de ocorrência de outras, semelhante ao risco geral de recorrência habitual (pelo menos 60%) após duas crises epilépticas não provocadas, que ocorrem nos 10 anos seguintes; 3) diagnóstico de uma síndrome epiléptica (e.g., epilepsia benigna da infância com pontas centro-temporais) (Fisher et al., 2014; Pimentel & Lopes-Lima, 2016). Calcula-se que uma em cada 100 pessoas tenha uma crise epiléptica durante a sua vida e apenas metade destas (0.5%) tenham epilepsia (Lopes-Lima, 2016).

O primeiro passo na abordagem de uma criança¹ com suspeita de epilepsia é a confirmação ou a exclusão do diagnóstico de epilepsia, no sentido de prevenir o uso desnecessário de medicação antiepiléptica ou, em contrapartida, o atraso na implementação das terapêuticas adequadas. Determinar se a criança apresenta crises devido ou não a alterações na atividade elétrica cerebral, e nesse caso, qual o tipo de crises e a sua causa, constitui um dos

¹Ao longo da presente dissertação, por uma questão de simplificação de leitura, o termo criança(s) será utilizado para nos referimos quer a crianças, quer a adolescentes. Somente em partes específicas do trabalho, focadas nas implicações e especificidades desenvolvimentais relacionadas com estas duas faixas etárias, faremos menção explícita aos termos crianças e/ou adolescentes.

grandes desafios enfrentados pelos neurologistas² (ver Figura 1). Uma crise isolada não é sinónimo de doença. O diagnóstico de epilepsia obriga à recorrência de crises não provocadas. Para além disso, nem todas as crises, ou ocorrências que sugerem a ocorrência de crises epiléticas, são evidência de epilepsia.

Cerca de 40% do total das crises registadas em idade pediátrica constituem crises sintomáticas agudas (Annegers, Hauser, Lee, & Rocca, 1995; Beghi et al., 2010). As crises sintomáticas agudas (também designadas por crises reativas ou situacionais) são crises que têm lugar em estreita associação temporal com um insulto transitório no sistema nervoso central, e tomadas como presumível manifestação aguda desse mesmo insulto (ILAE, 1989). Entre as causas mais frequentes para este tipo de crises contam-se os traumatismos crânioencefálicos, doença cerebrovascular, infeções do sistema nervoso central (e.g., meningites, encefalites) e abstinência de drogas (Beghi et al., 2010). As crises podem igualmente ocorrer no contexto de um episódio febril, coincidindo com a subida térmica. Neste caso designam-se de crises febris, situação que afeta entre 2 a 5% das crianças em desenvolvimento, sobretudo entre os seis meses e aos cinco anos de idade. As crises febris são geralmente situações com bom prognóstico, e que só numa pequena percentagem dos casos evolui para diagnóstico de epilepsia (Joshi, Wawrykow, Patrick, & Prasad, 2005; Wilmschurst et al., 2015).

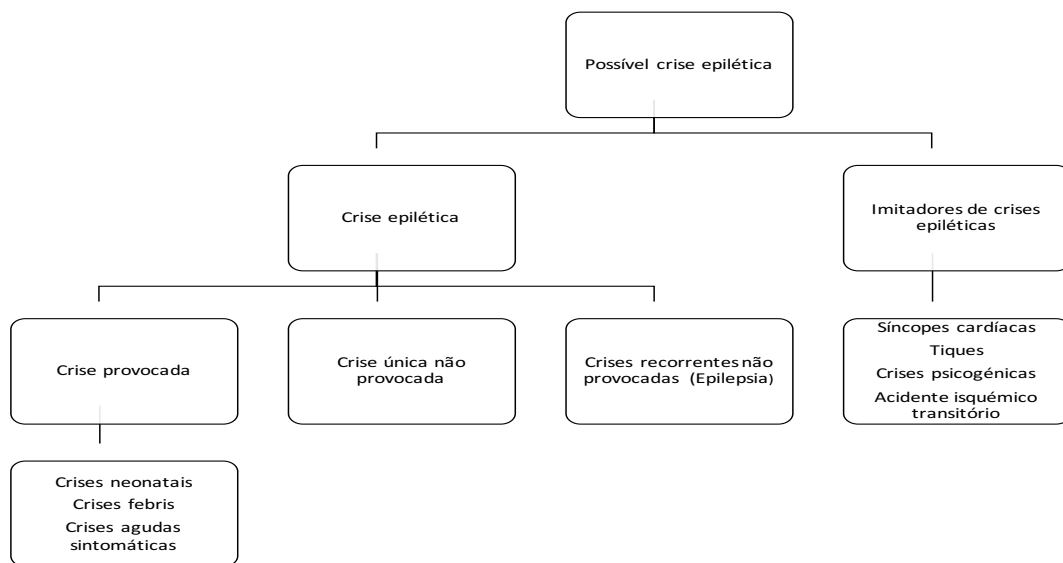


Figura 1 - Crises e imitadores de crises (adapt. de Institute of Medicine, 2012)

² Em Portugal, no âmbito do Serviço Nacional de Saúde, a organização dos cuidados de saúde em epilepsia tal como prevista pelo “Plano Nacional de Referência em Epilepsia” (Sales, 2010), compreende a implementação de Consultas Multidisciplinares de Epilepsia, como primeiro nível de atendimento diferenciado, e de Centros de Referência na Epilepsia Refratária, que são centros integrados de Epilepsia de alta complexidade e diferenciação, atualmente presentes em cinco unidades hospitalares portuguesas: Centro Hospitalar do Porto, Centro Hospitalar de São João, o Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, o Centro Hospitalar Lisboa Norte e o Centro Hospitalar Lisboa Ocidental (Alves, 2017).

Para além disso, as crises epiléticas podem também assemelhar-se a um grande número de eventos médicos e psiquiátricos paroxísticos (i.e., de início súbito), com os quais podem ser confundidas, os designados fenómenos paroxísticos não epiléticos (Loddenkemper & Wyllie, 2010; Martins, 2016). As situações mais frequentemente confundidas com a epilepsia na infância e adolescência são fenómenos decorrentes de doenças cardíacas (e.g., síncope), o espasmo do soluço, a lipotimia, a vertigem paroxística benigna, as perturbações do sono (e.g., bruxismo, terrores noturnos, pesadelos, sonambulismo), ou as crises psicogénicas não epiléticas (Brodtkorb, 2013; Glauser & Loddenkemper, 2013; Martins, 2016). Os fenómenos paroxísticos não epiléticos são frequentes, com uma incidência que pode ser seis vezes superior à da epilepsia; são situações benignas, transitórias e não necessitam de fármacos antiepiléticos, uma vez que a fisiopatologia, contrariamente à epilepsia, não é explicada por alterações da atividade elétrica cerebral, mas por mecanismos distintos (Glauser & Loddenkemper, 2013; Robalo, 2016).

As dificuldades em torno do diagnóstico inerentes à complexidade da identificação das causas, e determinação do tratamento apropriado (Bodde et al., 2012; Devinsky, Gazzola, & LaFrance Jr, 2011), têm como contrapartida o risco de estabelecimento de diagnósticos incorretos. Estudos recentes estimam que cerca 20 % das pessoas consideradas como sofrendo de epilepsia, não foram diagnosticadas corretamente (Oto, 2017).

1.2 Dados de epidemiologia

A epilepsia é a condição neurológica passível de tratamento mais comum em idade pediátrica e em jovens adultos (P. Camfield & Camfield, 2015; Shinnar & Pellock, 2002). De acordo com dados epidemiológicos divulgados no relatório europeu sobre epilepsia da Organização Mundial de Saúde, a taxa de incidência da epilepsia, definida como o número de novos casos por ano, varia entre os 28.9 e os 47 casos por 100 000 habitantes (Cross, 2011). Nos países desenvolvidos, registam-se dois picos de incidência da epilepsia, observando-se valores superiores durante os primeiros anos de vida, decrescendo ao longo da infância e adolescência voltando a subir depois dos 65 anos de idade (Banerjee & Hauser, 2008). Nos últimos anos tem-se verificado uma diminuição progressiva de incidência da epilepsia nos primeiros anos de vida, possivelmente devido à melhoria dos cuidados de saúde materno-infantil (Cross, 2011). A taxa de incidência acumulada de epilepsia aos 16 anos é de cerca de 0.8% (Berg, Jallon, & Preux, 2013), sendo que cerca de 40 a 50% do número total de casos surge até aos 18 anos (Olafsson et al., 2005; Shinnar & Pellock, 2002). A mediana da idade de início da epilepsia situa-se entre os 5 ou 6 anos (Shinnar & Pellock, 2002). A incidência da epilepsia é ligeiramente superior no sexo masculino e as epilepsias focais são mais frequentes que as generalizadas (Banerjee & Hauser, 2008). Relativamente à prevalência em idade pediátrica (definida como o número de crianças com uma determinada condição, num determinado momento temporal), os

valores encontram-se situados entre os 3.5 e os 5 casos por cada mil crianças (Berg et al., 2013). Na Europa estima-se que cerca de 900 000 crianças apresentem epilepsia ativa, contando-se cerca de 130 000 novos casos por ano (Forsgren, Beghi, Öun, & Sillanpää, 2005). Nos países em desenvolvimento, designadamente em Africa e na América Latina, a incidência da epilepsia é mais elevada, oscilando entre os 64 e os 190 casos por 100 000 habitantes, e contrariamente aos países desenvolvidos, o aumento do número de casos em adultos com idade avançada não se verifica (Institute of medicine, 2012).

Em Portugal, apesar da inexistência de estudos de base populacional, estudos epidemiológicos realizados na zona norte do país apontam para uma incidência de 30.6 novos casos por 100.000 habitantes por ano e para uma prevalência de 4.4 casos por mil habitantes (Lopes-Lima, 1998). Estima-se que em Portugal existam cerca de 40 a 70 mil pessoas com epilepsia , não existindo números específicos para a população pediátrica (Gouveira, 2017, 12 de Maio).

1.3 Classificação das crises, das epilepsias e das síndromes epiléticas

Desde a primeira proposta de classificação publicada em 1964 na revista *Epilepsia* (Gastaut et al., 1964), as terminologias e classificações das crises epiléticas, das epilepsias e síndromas epiléticos são uma matéria geradora de ampla discussão entre a comunidade científica, com propostas de revisão sucessivas, muito fruto dos avanços ao nível das tecnologias de diagnóstico (técnicas de neuroimagem, testes laboratoriais), da biologia e da genética. A investigação moderna das crises transformou o conhecimento sobre os mecanismos fisiopatológicos envolvidos, mostrando que a epilepsia é uma doença da rede neuronal e não apenas um sintoma de anomalias cerebrais locais (Berg et al., 2010; Scheffer et al., 2017). Já no início de 2017, a ILAE aprovou dois documentos propostos pelas comissões de classificação e terminologia: classificação operacional das crises epiléticas (Fisher, Cross, French, et al., 2017) e classificação das epilepsias (Scheffer et al., 2017). Atendendo, por um lado, à natureza diversa e complexa, -em termos de localização e extensão- em que a atividade cerebral é afetada pelas crises, e por outro, aos desenvolvimentos em curso ao nível dos sistemas de classificação, definir e categorizar os múltiplos tipos de epilepsia revela-se uma tarefa difícil. Entre as dimensões mais amplamente utilizadas na atualidade pela comunidade científica, e que serviram de referencial para o nosso trabalho contam-se: o tipo de crises, o tipo epilepsias e de síndromes epiléticas, e a etiologia.

1.3.1. Tipos de crises epiléticas

A primeira classificação internacional aprovada pela ILAE, em 1981, centrou-se na definição do tipo de crises. Tendo por base as manifestações clínicas das crises e os resultados dos exames eletroencefalográficos, esta classificação dividiu as crises em duas grandes categorias:

parciais (ou focais) e generalizadas (Commission on Classification and Terminology of the International League Against Epilepsy, 1981). As crises parciais originam-se numa rede de neurónios limitada a um dos hemisférios cerebrais; as crises generalizadas originam-se numa rede de neurónios que se distribui por ambos os hemisférios cerebrais. As crises podem ainda ser classificadas de tipo desconhecido (ver Quadro I, para uma caracterização mais detalhada).

Em 1989, no sentido de superar algumas limitações observadas na classificação de 1981, um novo sistema de classificação foi desenvolvido, centrado no conceito de síndrome epilética, passando as epilepsias a serem classificadas tendo por base critérios adicionais: localização das crises epiléticas (recapitulando a classificação anterior), a idade de início e etiologia (Commission on Classification and Terminology of the International League Against Epilepsy, 1989).

Apesar das revisões de terminologia e as novas propostas de classificação realizadas em 2001 (Engel, 2001), 2006 (Engel, 2006), 2010 (Berg et al., 2010), e mais recentemente em 2017 (Fisher, Cross, French, et al., 2017; Scheffer et al., 2017), com vista a melhorar a utilidade clínica da abordagem classificativa e a realizar uma melhor integração dos novos conhecimentos disponíveis, o esquema de divisão entre crises focais e generalizadas, proposto em 1981, bem como a terminologia e classificação das epilepsias e síndromes pediátricas proposta em 1989 pela ILAE, continua em amplo uso pela comunidade médica e científica (Glauser & Loddenkemper, 2013), motivo pelo qual serviu de referencial para o presente trabalho.

Quadro 1 - Tipos de crises epilépticas e respetiva caracterização

| CRISES PARCIAIS | | Originam-se no interior de uma rede neuronal limitada a um hemisfério cerebral. |
|--|--|---|
| Parciais simples | Sem confusão mental ou perda de consciência durante ou a seguir à crise; de curta duração; dependendo do local onde as disrupções no funcionamento cerebral ocorrem podem envolver movimentos motores simples (e.g., tremor num braço), alterações sensoriais (e.g., parastésias), alterações visuais, afasia ou sintomas psíquicos como a sensação de <i>déjà vu</i> . É comum as crises parciais simples precederem as crises parciais complexas ou as crises tónico-clónicas, sendo, nessa circunstância, designadas de “aura”. Entre as mais comuns contam-se breve sensação no estômago ou na cabeça (e.g., sentir um odor desagradável, um sentimento crescente, um som estridente, ou luzes cintilantes nos olhos). | |
| Parciais complexas | Num primeiro momento a pessoas pára o que estava a fazer, ficando com uma expressão facial fixa e um olhar vazia; de seguida, instala-se um padrão de comportamentos repetitivo, automático e desprovido sentido (automatismos), que persiste por breves minutos (e.g., morder o lábio, mexer na roupa, puxar os dedos, movimentos tónicos ou clónicos unilaterais). À medida que a pessoa recupera a consciência, segue-se um período breve de desorientação e confusão mental. A perda de postura ou queda são raras. | |
| CRISES GENERALIZADAS | | Originam-se dentro de uma rede de neurónios que se distribui por ambos os hemisférios do cérebro- |
| Tónico-clónicas | Anteriormente designadas de <i>grand mal</i> , constituem um tipo severo de crises, também designadas de convulsões, que se iniciam com perda súbita de consciência, e enrijecimento generalizado do corpo (fase tónica), seguido de contrações dos músculos (fase clónica). Pode durar alguns minutos, sendo seguida por um período de sonolência e confusão mental, bem como de cansaço, devido à atividade muscular intensa. | |
| Ausências | Anteriormente designadas de crises de <i>petit mal</i> ; são particularmente prevalentes em crianças dos três aos 14 anos. Por vezes são confundidas com “sonhar acordado”; consistem em breves perdas de consciência com olhar fixo, sem resposta à estimulação envolvente; pestanejo rápido, ou revulsão ocular de início súbito. Uma criança sem tratamento pode chegar a ter entre 50 a 100 crises de ausência num dia. Por vezes, ocorre alguma atividade motora prévia. | |
| Mioclónicas | Caraterizadas por contrações/sacudidelas ou espasmos breves e súbitas (não mais do que breves segundos), num músculo ou grupo de músculos, assemelhando-se a tremores; as crises habitualmente envolvem ambos os lados do corpo. Destacam-se dois grandes tipos de crises mioclónicas: a epilepsia mioclónica juvenil, com início habitual na puberdade, com as crises a ter lugar geralmente pouco depois do acordar. No caso das crises mioclónicas progressivas, ocorre uma combinação de crises mioclónicas e tónico-clónicas, com um agravamento progressivo dos sintomas ao longo do tempo, e maior dificuldade de controlo da sintomatologia. | |
| Clónicas | Consistem em contrações e relaxamentos parciais sucessivos e repetidos de um músculo. Mais raras. | |
| Tónicas | Consistem numa contração súbita e enrijecimento dos músculos; por vezes regista-se revulsão ocular, e à medida que os músculos do peito apertam e contraem, pode tornar-se mais difícil a respiração. Têm uma duração geralmente não superior a 20 segundos. | |
| Atónicas | Caraterizadas por perda súbita de tónus muscular. São breves, geralmente não excedendo os 15 segundos. Têm geralmente início na infância e estendem-se para a idade adulta. Apesar dos indivíduos geralmente permanecerem conscientes durante a sua ocorrência, e das crises não provocarem dor, podem advir ferimentos da queda em resultado da perda de força muscular súbita. | |
| Tónico-clónicas sec. generalizadas | Começam como uma crise parcial simples ou complexa que depois evolui para ambos os hemisférios e resulta em atividade convulsiva. | |
| CRISES NÃO CLASSIFICÁVEIS OU DE INÍCIO DESCONHECIDO | No caso de não ser possível determinar se se tratam de crises focais ou generalizadas, i.e., a informação dos registos de EEG pode ser inconclusiva e o início das crises difícil de determinar. | |

Nota: Traduzido e adaptado de Institute of Medicine, 2012, p. 34

1.3.2. Tipos de epilepsias e síndromes epiléticas

Em idade pediátrica é comum a presença de múltiplos tipos de crises e progressão de um tipo de crise para outro (Shinnar & Pellock, 2002). Doentes com epilepsias generalizadas podem apresentar uma vasta gama de crises: ausências, mioclónicas, atónicas, tónicas e tónico-clónicas. O diagnóstico é feito com base na avaliação clínica e geralmente apoiada por registos de EEG. As epilepsias focais incluem epilepsias unifocais ou multifocais, bem como epilepsias envolvendo um hemisfério, e que podem ser de vários tipos.

Quadro 2 - Exemplos de síndromes epiléticas com distintas gravidades

| Tipos | Caraterização clínica | Início, evolução e prognóstico |
|---|--|---|
| Epilepsia rolândica benigna (Epilepsia benigna de infância com pontas centro-temporais) | Crises de baixa frequência, com predomínio noturno, geralmente afetando os músculos faciais, pode acompanhar-se de convulsões tónico-clónicas. | Idade média de início varia entre o 6 os 8 anos; crises acabam por entrar em remissão mesmo sem tratamento, usualmente terminam por volta dos 15 anos. |
| Epilepsia de ausências infantil | Habitualmente envolvem breves (cerca de 10 segundos) episódios de olhar fixo, ou um período em que parece ausente. | Tem início entre os 4 e os 10 anos de idade, a maioria das epilepsias de ausências cessam no início da adolescência. |
| Epilepsia de ausências juvenil | A perda de consciência parece ser menos pronunciada e as crises são menos frequentes que na epilepsia de ausências infantil. | Tem início na puberdade. Pode evoluir para epilepsia mioclónica juvenil, esta última requiere medicação para a vida. |
| Epilepsia mioclónica juvenil | Envolve crises de ausências, crises mioclónicas e crises tónico-clónicas generalizadas. Frequentemente caraterizadas por abanões mioclónicos que têm lugar ao acordar. | Tem início entre os 5 e os 16 anos. As crises podem melhorar a partir da quarta década de vida. As crises são geralmente bem controladas com medicação. |
| Epilepsia do lobo temporal | Inclui crises focais, sem ou com perturbação da consciência, incluindo auras. | Pode começar na infância, mas é mais comum terem início na adolescência ou no início da idade adulta (jovens adultos). Tem uma resposta variada à medicação; no entanto, as crises que surgem num dos lobos temporais respondem bem à cirurgia. |
| Síndrome de Dravet | Começa com crises febris frequentes e mais tarde com crises mioclónicas; geralmente as crianças tem um desenvolvimento pobre da linguagem e das competências motoras. | Tem etiologia genética. Geralmente com início no primeiro ano de vida. O grau de compromisso cognitivo pode estabilizar ou melhorar ligeiramente com a idade, dependendo da frequência das crises. |
| Síndrome de Lennox-Gastaut | Envolve múltiplos tipos de crises, nomeadamente crises tónicas e atónicas; as crianças geralmente têm atraso de desenvolvimento e défice cognitivo. | Integra cerca de 2 a 5% das epilepsias em idade adulta. Epilepsia difícil de controlar com a medicação. |

Nota: Traduzido e adaptado de Institute of Medicine., 2012, p. 35

Uma síndrome epilética refere-se à combinação de características eletroclínicas que, tomadas em conjunto, definem uma entidade clínica distintiva e reconhecível (Berg et al., 2010; Scheffer et al., 2016). Estão atualmente identificadas acima de três dezenas de síndromes epiléticas distintos (Berg et al., 2010). Geralmente as diferentes síndromes são identificáveis com base na idade típica de início, tipos de crises específicas, padrão de EEG característico, elementos de imagiologia e comorbilidades (Berg et al., 2010). Tal reveste-se de grande utilidade uma vez que fornece informação sobre a etiologia a considerar, tipo de medicação anti-epilética mais adequada e/ou prognóstico provável (Robalo, 2016). As síndromes eletroclínicas podem estar associados a etiologias heterogêneas. Entre os tipos de epilepsia/síndromes epiléticas mais comuns contam-se a epilepsia rolândica benigna com pontas centro temporais, as ausências infantis, contabilizando cerca de 10 a 12% dos casos (Berg et al., 2013). O Quadro 2 proporciona uma visão geral de algumas das síndromes epiléticas mais frequentes.

1.4 Etiologia

Relativamente à etiologia, e de acordo um esquema de classificação que continua em amplo uso na comunidade científica, as epilepsias podem ser classificadas em três grandes tipos: idiopáticas, sintomáticas e criptogénicas (Commission, 1989). Uma epilepsia é referida de etiologia idiopática quando tem subjacente uma causa genética, presumida ou conhecida, e não uma patologia identificável (e.g., epilepsias benignas de infância, síndrome de Dravet). As epilepsias idiopáticas representam cerca de um terço de todas as epilepsias. As epilepsias sintomáticas (e.g., Esclerose tuberosa) são consideradas consequência de um dano reconhecido ou identificado no sistema nervoso central (e.g., tumor, infeções do sistema nervoso central (neurocisticercose, VIH), traumatismo cranioencefálico, displasia cortical). No caso das epilepsias criptogénicas, suspeita-se de uma causa sintomática, mas ainda não foi possível estabelecer a sua natureza exata, ou seja, a causa permanece oculta ou escondida. As epilepsias criptogénicas e idiopáticas, i.e., casos em que não é possível identificar a causa exata da epilepsia, reúnem entre 50% a 80% dos casos registados (e.g. Oka et al., 2006; Shinnar & Pellock, 2002; Wirrell, Grossardt, Wong-Kisiel, & Nickels, 2011). Em 2010, a comissão de trabalho de terminologia e classificação da ILAE (Berg et al., 2010), propôs uma alteração de terminologias para a etiologia, com as categorias “estrutural-metabólica”, “genética” e de “causa desconhecida” a substituírem, ainda que parcialmente, os termos “sintomática”, “idiopática” e “criptogénica”, respetivamente. Mais recentemente a ILAE avançou com um esquema de classificação da etiologia das epilepsias mais diferenciado, baseado em seis grandes grupos: “genética”, “estrutural”, “metabólica”, “imunológica”, “infeciosa” e “desconhecida”(Scheffer et al., 2016). Estas categorias não são completamente independentes, pelo que um mesmo doente pode ser classificado em mais do que uma categoria etiológica (Scheffer et al., 2016).

1.5 Comorbilidades

Dados da literatura revelam que aproximadamente 50 a 60 % das crianças com epilepsia apresentam uma ou mais condições de saúde comórbidas (Ott et al., 2003; Wagner, Wilson, Smith, Malek, & Selassie, 2015) i.e., condições de saúde que acontecem nas pessoas com epilepsia com uma frequência muito superior ao esperado na população geral. Na maior parte dos casos, não é possível determinar se estas comorbilidades são causadas pela epilepsia e seus tratamentos, se foram as comorbilidades que conduziram à epilepsia, ou se existe uma causa subjacente comum (Austin et al., 2010; Fastenau et al., 2004). É ainda importante atender ao possível contributo de fatores de stress psicossocial de vária ordem, associados, ou não, à epilepsia (Cushner-Weinstein et al., 2008). Em algumas crianças e adolescentes, estes problemas limitam mais a sua qualidade de vida do que as crises epiléticas *per se* (Ronen, Fayed, & Rosenbaum, 2011).

As comorbilidades de cariz psicológico mais comuns na epilepsia pediátrica são as perturbações do neurodesenvolvimento (e.g., perturbação de hiperatividade com défice de atenção [PHDA], problemas de aprendizagem, problemas cognitivos, perturbações do espectro do autismo, paralisia cerebral), e os problemas de saúde mental (perturbação de oposição desafio, perturbações de ansiedade e depressão) (Modi, Guilfoyle, & Wagner, 2017; Russ, Larson, & Halfon, 2012; Wagner et al., 2015)

As perturbações do neurodesenvolvimento estão presentes em cerca de 36% das crianças com epilepsia dos 6 aos 18 anos (Wagner et al., 2015). As epilepsias identificadas em idade mais precoce associam-se habitualmente a um neurodesenvolvimento adverso, tanto do ponto de vista estrutural, como das funções cognitivas (Berg, 2011). Bebés com espasmos infantis experienciam frequentemente estagnação ou mesmo regressão do desenvolvimento, que pode persistir mesmo no caso de se conseguir controlo clínico das crises (Berg et al., 2013). Entre 20 a 30% das crianças com epilepsia têm défice cognitivo associado (P. Camfield & Camfield, 2002; Shinnar & Pellock, 2002). Crianças com epilepsia nos dois primeiros anos de vida apresentam um risco acrescido de problemas de desenvolvimento, atraso cognitivo ou de perturbação do espectro do autismo (Reilly, 2014). Crianças com síndromes epiléticas de início precoce e sujeitos a atrasos no diagnóstico apresentam pior prognóstico (Berg, Loddenkemper, & Baca, 2014). A PHDA tem sido descrita com uma das comorbilidades mais frequentes nas crianças com epilepsia, com prevalências que variam entre os 12 e os 57% (S. Davis et al., 2010; Dunn, Austin, Harezlak, & Ambrosius, 2003; J. E. Jones et al., 2007). Os problemas de aprendizagem e de realização escolar são frequentes entre as crianças e adolescentes com epilepsia, designadamente entre aquelas com capacidades intelectuais globais dentro da média que frequentam o ensino regular (Lopes, Simões, et al., 2013; C. Reilly & Neville, 2011; Wo, Ong, Low, & Lai, 2017). Mesmo entre as crianças com epilepsia com síndromes considerados

benignos e sem registo de défices pronunciados ao nível cognitivo, uma percentagem significativa apresenta défices difusos ao nível da atenção, memória, velocidade de processamento (Aldenkamp, Weber, Overweg-Plandsoen, Reijts, & van Mil, 2005; Lopes, Monteiro, Fonseca, Robalo, & Simões, 2014). A taxa de insucesso escolar e a necessidade de integração das crianças e adolescentes com epilepsia ao abrigo das medidas da Educação Especial são bastante superiores ao verificado nas crianças da população geral, situação que afeta cerca de metade das crianças com diagnóstico de epilepsia (Fastenau et al., 2004; Lopes, Monteiro, Fonseca, Robalo, & Simões, 2013)

No que se refere aos problemas de saúde mental, uma revisão de estudos coloca em evidência que crianças com epilepsia sem outras alterações do neurodesenvolvimento, apresentam um risco três a seis vezes maior de desenvolverem perturbações de comportamento e psicopatologia, quando comparado com a população em geral (Ott et al., 2000). Estudos epidemiológicos realizados nos últimos trinta anos indicam que as perturbações do comportamento são 4.8 vezes mais frequentes entre crianças com epilepsia do que na população geral e aproximadamente 2.5 vezes mais frequentes do que em crianças com outras condições crónicas de saúde que não envolvem o sistema nervoso central (Austin & Caplan, 2007; Rodenburg, Stams, Meijer, Aldenkamp, & Dekovic, 2005). As crianças com epilepsia tendem a evidenciar mais problemas internalizantes (ansiedade, depressão, problemas de relacionamento interpessoal, queixas somáticas) do que externalizantes (e.g., problemas de conduta) (Rodenburg et al., 2005). Estudos de vigilância com crianças e adolescentes com epilepsia nos EUA reportam uma taxa de depressão de 8% em crianças dos 6 aos 12 anos de idade, e de 20% em adolescentes dos 13 aos 18, sendo que 14% apresenta ideação suicida, percentagens bastante superiores ao verificado na população geral (Guilfoyle, Monahan, Wesolowski, & Modi, 2015; Wagner et al., 2016; Wagner et al., 2015). Os sintomas depressivos em crianças e adolescentes com epilepsia sobrepõem-se ou confundem-se muitas vezes com eventuais efeitos secundários da medicação ou com défices neurocognitivos comuns na epilepsia (sonolência, lentificação, alterações de sono) (Wagner et al., 2016). A prevalência ao longo da vida de perturbações de ansiedade entre crianças com epilepsia também é superior à registada nos controlos saudáveis (Wagner et al., 2015). Relativamente à perturbação de oposição desafio, a prevalência deste tipo de problema de comportamento entre crianças com epilepsia varia entre os 13-16% (Selassie et al., 2014).

Em 30 a 60% dos casos de crianças e adolescentes com epilepsia, as comorbilidades permanecem por diagnosticar e não são sujeitas a qualquer tipo de tratamento (Ott et al, 2001; Reilly et al, 2014). A deteção e intervenção precoce destas perturbações são fatores críticos para otimizar a qualidade de vida das crianças com epilepsia e o seu funcionamento cognitivo e socioemocional (Modi et al., 2017).

1.6 Tratamento médico

O tratamento médico de primeira linha na epilepsia são os fármacos antiepiléticos (Glauser et al., 2006). Este tratamento é sintomático ou seja, visa a redução das crises, não tendo a capacidade de impedir o desenrolar do processo epileptogénico (Chaves, 2016). Existe atualmente uma grande diversidade de fármacos antiepiléticos disponíveis (e.g., ácido valpróico, lamotrigina, oxcarbamazepina), porém da sua toma podem advir inúmeros efeitos secundários. Entre os mais referidos contam-se a sonolência excessiva, a lentificação de pensamento, a irritabilidade, labilidade emocional, alterações de sono e apetite, problemas de atenção (Glauser, 2004), muitas vezes acarretando uma perturbação significativa no funcionamento diário da criança (Modi, Ingerski, Rausch, & Glauser, 2011).

A decisão terapêutica face à medicação tem em conta vários aspetos, designadamente: a idade do doente, o sexo, o tipo de crises/síndrome epilética, a etiologia, as comorbilidades, a eficácia clínica do fármaco, a tolerabilidade ou os efeitos secundários dose-dependentes (Chaves, 2016). É consensual que num primeiro momento deve ser utilizado um fármaco de primeira linha em monoterapia, tendo por base as recomendações de Nice (NICE, 2012, jan). No caso de este falhar, deve-se recorrer a um segundo fármaco, também em monoterapia. Se este também falhar, deve ser considerado então uma associação de fármacos antiepiléticos, a qual, idealmente, não deve ultrapassar os dois fármacos, situação que afeta cerca de 40% dos pacientes diagnosticados (Glauser & Loddenkemper, 2013).

O diagnóstico de epilepsia e a decisão relativa ao tratamento são dois aspetos a avaliar separadamente (Chaves, 2016). Existem casos, como nas epilepsias rolândicas de infância, que dada a baixa frequência e o seu carácter autolimitado, deve ser ponderada com os familiares a decisão de não medicar (Robalo, 2016). No extremo oposto, congregando cerca de 30% dos casos, situam-se as epilepsias refratárias (Eriksson & Koivikko, 1997; Sillanpaa & Schmidt, 2009). Considera-se epilepsia refratária uma situação clínica em que se registou o fracasso de dois regimes terapêuticos apropriados para o tipo de crises ou síndromes epiléticas em questão (quer em mono, quer em politerapia), para obter um controlo duradouro das crises epiléticas (Kwan et al., 2010 jun; Kwan, Schachter, & Brodie, 2011). Nestas incluem-se as epilepsias sintomáticas de causa estrutural e metabólica, e as encefalopatias epiléticas (e.g., Síndrome de Dravet), situações que exigem esquemas farmacológicos complexos logo desde o início, por vezes combinando terapêuticas farmacológicas e não-farmacológicas (Kwan et al., 2011). Nos casos de epilepsia refratária à medicação é recomendada avaliação para tratamento cirúrgico, a acontecer em centros altamente especializados de cirurgia da epilepsia, e efetuados por equipas multidisciplinares (Chaves, 2016). Porém, esta opção terapêutica só é viável num subgrupo cuidadosamente selecionado de doentes, podendo nestes casos significar uma remissão sustentada ou um controlo substancial das crises. Caso a cirurgia não seja viável, existem outras

alternativas de tratamento, designadamente a opção por dietas ricas em gordura e pobres em hidratos de carbono com o fim de simular o estado de jejum prolongado (e.g., dieta cetogénica), sendo evidentes os efeitos antiepilépticos observados; ou o recurso a implantes neuroestimulativos (G. Smith, Wagner, & Edwards, 2015). Mais recentemente, com os avanços do conhecimento ao nível do papel dos anticorpos no desencadear de crises epilépticas específicas, passaram a ser utilizados certas gamas de imunomoduladores, como os corticosteroides (Glauser & Loddenkemper, 2013; Panayiotopoulos, 2007).

1.7 Prognóstico e perfis de evolução da doença

Estudos epidemiológicos de base populacional realizados a nível internacional nas últimas décadas permitiram um melhor conhecimento do perfil de evolução habitual das epilepsias (Beghi, Giussani, & Sander, 2015; Berg & Rychlik, 2015). Cerca de dois terços das crianças ou jovens que iniciam medicação antiepiléptica apresentarão remissão completa dos sintomas após dois a cinco anos de tratamento (Berg & Rychlik, 2015; Giussani et al., 2016; Sillanpaa & Schmidt, 2009). Em outros casos, a medicação terá de ser mantida durante a vida adulta (Berg et al., 2001).

O critério médico habitual para suspensão do tratamento é ausência de crises por um período de dois anos (Panayiotopoulos, 2007). Em geral, considera-se que uma epilepsia está “resolvida” nas pessoas que estão livres de qualquer crise nos últimos 10 anos, e sem medicação antiepiléptica nos últimos cinco anos (Fisher et al., 2014). Entre os fatores de bom prognóstico destacam-se a ausência de alterações neurológicas detetáveis e boa resposta inicial ao tratamento farmacológico (Schiller & Najjar, 2008; Sillanpaa & Schmidt, 2009). Em cerca de 20 a 30% dos casos, a epilepsia entrará em remissão, mesmo na ausência de tratamento antiepiléptico, prognóstico típico nas epilepsias rolândicas de infância (Kwan & Sander, 2004). Em contrapartida, em aproximadamente um terço das crianças com epilepsia não se consegue um bom controlo de crises, persistindo as crises refratárias à medicação (Eriksson & Koivikko, 1997; Sillanpaa & Schmidt, 2009). Pacientes com epilepsias refratárias apresentam uma taxa de mortalidade aumentada, maiores dificuldades no plano psicossocial e um impacto mais severo na sua qualidade de vida (Laxer et al., 2014; Schiller & Najjar, 2008). As raparigas podem revelar um risco aumentado de crises depois da menarca, aspeto que sugere que as alterações biológicas na puberdade podem influenciar a atividade epiléptica (Cramer, Gordon, Schachter, & Devinsky, 2007). Na proposta de classificação da ILAE de 2010 das síndromes eletroclínicas recomenda-se a substituição do termo “benigna”, amplamente utilizado para caracterizar certos síndromes epilépticos, pelas designações “autolimitada”, de modo a melhor refletir o entendimento atual de que as mesmo as formas mais ligeiras de síndromes epilépticas podem estar associados a comorbilidades psicossociais e cognitivas extensas (Berg et al., 2010)

Dada a diversidade de síndromes epiléticas e prognósticos, é importante reconhecer que há epilepsias em que o controlo das crises nunca é completo, e para estes casos definir objetivos terapêuticos realistas junto da família, bem como alertar para a possibilidade de ocorrência de traumatismos físicos múltiplos, designadamente os cranioencefálicos (Robalo, 2016).

2 Epilepsia: Aspectos socio-históricos

“The history of epilepsy can be summarized as 4000 years of ignorance, superstition and stigma, followed by 100 years of knowledge, superstition and stigma” (Kale, 1997, p.2).

2.1 Epilepsia ao longo da história

Ao olhar a epilepsia a partir de uma perspetiva socio-histórica verifica-se que ao longo do tempo têm coexistido dois mundos paralelos: o da ciência e dos cuidados médicos, por um lado, e o da superstição, por outro. Se no mundo da ciência, a compreensão da epilepsia tem assistido a progressos muito notórios, especialmente nos dois últimos séculos, no mundo da superstição, a epilepsia continua carregada de misticismo e associada ao sobrenatural, à loucura e ao perigo de contágio (Wolf, 2010).

Reconhecida desde tempos ancestrais, o termo *epilepsia* deriva do verbo grego “epilambanein” (επιλαμβάνειν), que significa “apoderar-se, afligir, possuir” (Magiorkinis, Sidiropoulou, & Diamantis, 2011, p.132). Os primeiros registos históricos da epilepsia constam em papiros egípcios e em tábuas cuneiformes da Antiga Babilónia, de há mais de 3000 anos atrás. De acordo com estes, na base das diferentes manifestações epiléticas estariam maldições enviadas pelos deuses, possessões por espíritos maléficos ou outras causas sobrenaturais (Temkin, 1971). Para “apaziguar os demónios”, o tratamento consistia em oferendas, purificações, sacrifícios ou mesmo o recurso a práticas trepanatórias, com vista a libertar o corpo doente (Fernandes, 2005; Magiorkinis et al., 2011).

Para os gregos, a doença era designada de *mal sagrado* com base na crença de que esta constituía uma forma de comunicação entre as sacerdotisas e os deuses, quanto estas proferiam os seus oráculos no meio das convulsões. Para os romanos, a epilepsia era designada de *mal comicial*, uma vez que a ocorrência de uma crise epilética entre os presentes num comício do senado era tomada como um mau sinal dos deuses e obrigava à sua imediata suspensão; a pessoa era isolada, e local da ocorrência purificado, como forma de evitar o contágio (Masia & Devinsky, 2000). Os hebreus acreditavam que cuspir sobre um corpo em convulsões obrigaria o espírito maligno a sair do corpo. Nos textos bíblicos surgem mesmo descrições (S. Marcos, capítulo IX, versículos 13 a 28) onde Jesus expulsa o demónio do corpo de uma criança que apresentava convulsões, com recurso a preces e orações (Fernandes, 2005; Temkin, 1971).

Um dos marcos importantes da história da epilepsia remonta a Hipócrates, quando por volta do ano 450 a.C. escreve o primeiro tratado sobre epilepsia, intitulado *On the Sacred Disease*. Neste tratado Hipócrates refuta a origem divina da epilepsia, considerando-a uma doença do cérebro, causada por um desequilíbrio nos humores corporais, mais concretamente de um excesso de fleuma, suscetível de ser tratada com dietas e outros tratamentos naturais (Devinsky,

Vorkas, Barr, & Hermann, 2008; Pinto, 2016). Apesar da proposta de Hipócrates, durante a idade média as concepções sobrenaturais da epilepsia voltaram a prevalecer (Masia & Devinsky, 2000; Pinto, 2016). No clássico *Malleus Maleficarum*, manual de perseguição às bruxas e feiticeiros elaborado pela Santa Inquisição, surgem descrições de situações passíveis de ser identificadas como convulsões epiléticas, que eram tomados como evidência de castigo divino ou possessão espiritual (Magiorkinis et al., 2011; Wolf, 2010). Tais pessoas eram consideradas hereges, e por isso sujeitas a práticas exorcistas ou benzeduras executadas por padres e outros representantes da igreja, e muitas delas condenadas à morte, como forma a libertar o corpo dos demónios.

Com os avanços verificados na neurofisiologia e microscopia nos finais dos séculos XVIII e XIX, a ideia hipocrática da epilepsia como uma doença física do cérebro ganha maior aceitação. Um dos mentores da moderna neurologia foi John Hughlings Jackson, médico britânico que estudou as bases anatomopatológicas da epilepsia. No seu artigo *A Study of Convulsions* datado de 1870, Jackson defendeu a teoria de que a epilepsia era causada por descargas ocasionais, de início súbito, excessivas e síncronas, com origem na massa cinzenta cerebral, fornecendo deste modo as fundações para a moderna cirurgia da epilepsia (Reynolds & Trimble, 2009). Em paralelo, outras descobertas registadas no mundo científico deram um contributo decisivo para que a epilepsia pudesse ser compreendida como doença de base cerebral, passível de tratamento, designadamente, a descoberta dos registos eletroencefalográficos via EEG - de crucial importância para o estudo do funcionamento cerebral e para a deteção de focos epileptogénicos; a descoberta do neurónio, da teoria neuronal e dos mecanismos de transmissão neuronal ocorrida nos finais de século XIX, início do século XX, e que forneceram as bases para o desenvolvimento da terapêutica farmacológica (Magiorkinis, Diamantis, Sidiropoulou, & Panteliadis, 2014; Magiorkinis et al., 2011). As últimas décadas têm registado avanços significativos ao nível das técnicas de neuroimagem, da microneurocirurgia e da clarificação dos mecanismos patofisiológicos subjacentes à epilepsia, bem como ao nível da investigação das associações entre fatores genéticos e crises epiléticas (Pinto, 2016).

2.2 Estigma social em relação à epilepsia

“First and foremost, we need to be cognizant that disability, and its associated stigma, is a social, and so a changeable, construction” (Jacoby & Austin, 2007, p.8)

Desde tempos remotos, e em diferentes contextos culturais, que a epilepsia surge associada a um forte estigma social (Jacoby & Austin, 2007; Temkin, 1971). De acordo com a teoria sociológica de Goffman (1963), o estigma refere-se a uma perda de estatuto social como resultado de estar na posse de um atributo gerador de uma *diferença indesejada*, algo que prejudica a identidade social e coloca a pessoa numa uma posição de inferioridade. Mas o

conceito de estigma social transcende em muito a realidade individual dos doentes (Fernandes, Snape, Beran, & Jacoby, 2011). Moldada por forças históricas e sociais, a estigmatização pode ser compreendida como um processo dinâmico e contextual, moderada por efeitos imediatos do contexto social e situacional sobre a perspectiva do estigmatizador, do estigmatizado e da interação entre os dois (Fernandes, Noronha, Sander, & Li, 2008; Silveira, Martins, Soares, Gomide, & Ronzani, 2011). As crenças, culturalmente específicas, acerca das causas e prognóstico da epilepsia, ajudam a definir a forma como a doença é gerida, tanto individual como coletivamente, bem como o grau de estigma que lhes está associado (Fernandes & Li, 2006; Jacoby, Snape, & Baker, 2005). Devido às associações históricas da epilepsia com a bruxaria, possessão demoníaca, ou o castigo divino, as crenças e representações sociais dominantes em torno da doença conduziram a que as pessoas com epilepsia fossem rotuladas de hereges, insanas ou perigosas (Devinsky et al., 2008). Estes estereótipos negativos alimentaram atitudes e comportamentos de ostracização, perseguição, discriminação e rejeição social em relação às pessoas com epilepsia e respetivas famílias. Em paralelo, as próprias práticas e discursos científicos nos dois últimos séculos acabaram por contribuir, inadvertidamente, para a reificação do estigma em relação à epilepsia (Devinsky et al., 2008; Masia & Devinsky, 2000). A criação dos primeiros asilos e colónias para albergar os doentes com perturbações mentais e com epilepsia, no início do século XIX, reforçou a ideia da epilepsia como contagiosa, devido à ocorrência de crises psicogénicas não epiléticas na população psiquiátrica (Temkin, 1971). Adicionalmente, a introdução nos manuais psiquiátricos, no início do séc. XX, do conceito de personalidade epilética, caracterizada por um conjunto de traços patológicos - impulsividade, viscosidade afetiva, egocentrismo, propensão para a violência - e generalizado para todos os doentes epiléticos, comportou um impacto lesivo na perceção dos indivíduos com epilepsia, invariavelmente percebidos como perigosos para a sociedade (Devinsky et al., 2008). Mais recentemente, as evidências biomédicas (elevada prevalência de comorbilidades psicológicas, problemas de aprendizagem, efeitos cognitivos negativos associados à toma de medicação, entre outros), acabaram também por acarretar efeitos negativos na forma como as pessoas com epilepsia são percecionadas (Reis & Meinardi, 2002).

Na atualidade, o legado dos estereótipos negativos em torno da epilepsia persiste, ainda que com amplas variações interculturais (Baulac et al., 2015; Masia & Devinsky, 2000). Com vista a melhorar a aceitação, tratamento e qualidade dos serviços prestados aos doentes com epilepsia, em 1997 a World Health Organization (WHO), em conjunto com a International League Against Epilepsy (ILAE) e o Internacional Bureau for Epilepsy (IBE) lançaram uma Campanha Global de sensibilização para a epilepsia intitulada *Out of the shadows* (Baulac et al., 2015). Um dos grandes alvos desta iniciativa têm sido os países em desenvolvimento, locais onde a grande maioria dos doentes não tem tratamento adequado, não só pelas limitações de serviços

especializados, mas também pela escassez de informação, desconhecimento de que a epilepsia é uma doença crónica, controlável com tratamento adequado, pela descontinuação precoce do tratamento, e pela vigência das crenças místicas em torno da epilepsia e respetivo tratamento (Institute of medicine, 2012). Ainda assim, mesmo nos países europeus ocidentais e da América do Norte, reconhecidos pelos seus elevados padrões de cuidados de saúde na área da epilepsia, onde os doentes têm maior facilidade no acesso a serviços médicos de qualidade, e o tratamento farmacológico disponível garante, na maioria das situações clínicas, um eficaz controlo das crises, o fardo do estigma social constitui uma peça fundamental na compreensão do impacto da epilepsia (Baker, Brooks, Buck, & Jacoby, 2000; Baulac et al., 2015; Malmgren et al., 2003). A imprevisibilidade das crises, a natureza exuberante e socialmente sancionável das manifestações sintomáticas (e.g., descontrolo esfinteriano, movimentos corporais estranhos, desvio ocular, salivação, perda de contacto com a realidade envolvente), a permanência de conceções erradas sobre a natureza dos sintomas, associadas a falta de informação e conhecimento, bem como o sentimento de desconforto e impotência que causa nas pessoas que observam as crises, constituem alguns dos motivos passíveis de contribuir para a manutenção dos estereótipos (Fernandes & Li, 2006; Jacoby et al., 2005).

Atendendo à complexidade do conceito de estigma social, e aos diferentes níveis sistémicos onde o estigma produz efeitos, Muhlbauer (2002) propôs uma conceptualização do estigma a operar a três níveis: intrapessoal, interpessoal e institucional. O nível intrapessoal do estigma reflete-se nas crenças e medos da pessoa com epilepsia em relação a ser ou sentir-se diferente pelo facto de ter uma condição de saúde considerada estigmatizante no seu meio cultural de inserção (Jacoby & Austin, 2007; Muhlbauer, 2002). Enquanto para as pessoas com doenças crónicas não estigmatizantes, como a diabetes ou asma, o foco da experiência emocional da doença reside no sentimento de perda, para as pessoas com doenças crónicas estigmatizantes, como é o caso da epilepsia, o foco reside em lidar com sentimentos de culpa, vergonha e desvalorização, aspetos que impulsionam a necessidade de manter o diagnóstico secreto (Jacoby et al., 2005).

O nível interpessoal do estigma está patente ao nível das interações no domínio mais privado do sistema familiar, bem como no domínio mais público das interações com as pessoas externas a este sistema (Muhlbauer, 2002). Com frequência doentes e familiares referem que o sofrimento que deriva das atitudes negativas dos outros e da expectativa de discriminação é superior ao sofrimento diretamente associado ao ter de lidar com as crises epiléticas (Jacoby & Austin, 2007; Jacoby, Gorry, Gamble, & Baker, 2004).

A nível institucional o estigma opera na forma de regras, leis, procedimentos das instituições em posições de poder, que impõem restrições, mais ou menos explícitas, aos direitos e oportunidades das pessoas com epilepsia, designadamente ao nível do trabalho,

casamento, fertilidade, acesso a espaços públicos ou direito à carta de condução (Jacoby & Austin, 2007; Wolf, 2010). No pós-revolução industrial, muitos das pessoas com epilepsia eram consideradas inaptas para o trabalho pelo receio de ocorrência de crises no exercício das suas funções, restrição que comprometia as possibilidades de condução de uma vida autónoma (Wolf, 2010). Nos Estados Unidos da América, até 1970, existia legislação que negava o direito de acesso a sítios públicos como teatros e restaurantes a pessoas com epilepsia. O estigma também se foi refletindo ao nível do direito de constituição da família. Na Alemanha, no período nazi, as pessoas com epilepsia eram forçadas à esterilização (Wolf, 2010). Em vários estados norte-americanos, até meados dos anos 50, e no Reino Unido, até 1970, vigoravam proibições de casamento para pessoas com epilepsia, fundados na crença da hereditariedade da doença, e na presumida incapacidade dos doentes manterem uma vida independente (Masia & Devinsky, 2000). Na Índia, onde a proibição de casamento vigorou até 1999 e onde a grande maioria dos casamentos continua a ser organizado pela família, as probabilidades de uma jovem do sexo feminino com epilepsia se casar continuam muito reduzidas (Wolf, 2010). Atualmente, apesar dos esforços desenvolvidos nos últimos anos, do ponto de vista legislativo, no sentido de melhor delimitar as restrições a setores laborais específicos, atendendo às especificidades do tipo de epilepsia e à frequência das crises, as taxas de desemprego e subemprego de adultos com epilepsia são superiores às encontradas em pessoas sem a doença (Baker et al., 2000).

3 Compreender a adaptação da criança e seus pais no contexto da epilepsia pediátrica: Integração teórico-conceitual

Nas últimas décadas tem-se observado um progressivo interesse pela investigação e intervenção em torno das dimensões psicossociais da epilepsia pediátrica. Este interesse é consistente com as atuais recomendações internacionais de tratamento que enfatizam a necessidade de dirigir os esforços no sentido de permitir às crianças e respetivas famílias viverem uma vida o mais livre possível das complicações médicas e psicossociais da epilepsia (Baulac et al., 2015; Ronen, Streiner, & Rosenbaum, 2003a). Sendo o contributo da Psicologia fundamental para responder a esta necessidade, impõe-se uma incursão pelos seus territórios teórico-conceituais passíveis de viabilizar uma leitura e compreensão dos resultados e processos de adaptação das crianças e suas famílias em contextos de adversidade relacionada com a presença da epilepsia. Na presente investigação, dois referenciais assumiram particular destaque, funcionando como bússola nos domínios teórico-conceitual e empírico do projeto de investigação: a Psicologia da Família e a Psicologia Pediátrica.

3.1 Grandes referenciais teórico-conceituais

3.1.1 Psicologia da Família

A Psicologia da Família constitui um território amplo e complexo³, alicerçada do ponto de vista conceptual, na epistemologia sistémica (M. Stanton, 2009; M. Stanton & Welsh, 2012). Deslocando o foco dos processos intrasubjetivos do sujeito para o campo das “relações no interior da família, no casal, nos grupos, nas organizações e nos contextos nos quais essas relações existem” (Nutt & Stanton, 2011, p. 92), a Psicologia da Família expande o repertório de compreensão e intervenção tradicional dos psicólogos (Kaslow, Celano, & Stanton, 2005).

A complexidade sistémica defende que o ser humano é melhor compreendido quando integrado na sua ecologia social (Alarcão, 2000; Relvas, 1999). O modelo bioecológico do desenvolvimento humano⁴ deu um grande contributo a este nível, ao elencar os vários níveis de sistemas, sucessivamente mais amplos, que envolvem a pessoa e influenciam o seu desenvolvimento, dos mais proximais (microsistemas), aos mais distais (macrossistemas), sendo ainda considerada a influência da dimensão temporal, por via do cronossistema (Bronfenbrenner,

³ A complexidade do território conceptual e empírico da Psicologia da Família é sintetizada por Barbara Fiese, à data deste trabalho *Editor-in-chief* do *Journal of Family Psychology*, da seguinte forma: “Family psychology is a complex field, as it includes systems perspectives on the multiple influences on relationships, developmental perspectives on how relationships are formed and sustained over time, cultural perspectives on how society and traditions affect relationships, the intersection of individual differences and social relationships, and practice components in how to affect real and meaningful changes in couple, parent and family relationships.” (Fiese, 2016, p.1)

⁴ O modelo bioecológico de desenvolvimento (Bronfenbrenner & Morris, 2006) será apresentado de forma mais detalhada num ponto posterior deste capítulo, quando fizermos referência à sua aplicação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas.

1986; Bronfenbrenner & Morris, 2006). Deste modo, as crianças ao longo do seu desenvolvimento são influenciados pela interação de fatores biológicos, psicológicos, familiares, sociais, culturais, políticos, que evoluem ao longo do tempo.

A consideração do papel da variável *tempo* no funcionamento dos sistemas é crucial no pensamento sistémico. Os sistemas não são estáticos, mas antes dinâmicos. Refletem influências históricas a nível individual (sucessos e fracassos ao longo do ciclo de vida), interpessoal (padrões e valores familiares transmitidos intergeracionalmente), e macrosistémicos (efeitos de coorte/acontecimentos ou circunstâncias que marcam uma geração e que interagem com os fatores individuais e interpessoais; ou evolução dos valores sociais) (M. Stanton & Welsh, 2012).

De acordo com a teoria dos sistemas, um sistema é composto por um conjunto de unidades em interrelação (Von Bertalanffy, 1969). Como sistema, a família partilha as propriedades e características dos restantes sistemas. A família é um todo, composto por subsistemas (e.g., subsistema parental, fraternal), e simultaneamente parte de outros sistemas mais vastos (e.g., comunidade), hierarquicamente organizados, com os quais co-evolui (Alarcão, 2000). Entre os múltiplos componentes do sistema familiar e nas relações com os sistemas mais amplos existem interações simultâneas e interdependentes, e não meramente relações simples de causalidade linear, tal como atesta a propriedade da circularidade sistémica (M. Stanton & Welsh, 2012). Múltiplas causas e efeitos estão assim envolvidas na etiologia, evolução e resolução de problemas familiares. É privilegiada uma visão circular das interações, onde o comportamento de cada um membro da família é indissociável do comportamento dos restantes, e aquilo que lhe acontece afeta a família no seu todo, tanto a nível individual como das relações do sistema (Alarcão, 2000). Em simultâneo, a família não pode ser reduzida ao conjunto dos seus elementos ou componentes, nem dos seus atributos ou características individuais, de acordo com o princípio da totalidade sistémica. Tanto na investigação, como na prática, a perspetiva sistémica defende que as perspetivas de diferentes participantes no sistema devem ser estudadas e valorizadas (M. Stanton & Welsh, 2012). Num plano desenvolvimental, tais assunções são operacionalizadas no modelo transacional (Sameroff & Chandler, 1975) onde a criança é concebida não como recipiente passivo dos processos de socialização da família, mas antes como desempenhando um papel ativo no seu contexto de desenvolvimento, por via das suas características e comportamentos, bem como das influências bidirecionais que acontecem entre a si, os seus pais, e os contextos mais abrangentes que os envolvem, ao longo do tempo (Fiese & Sameroff, 1989; Sameroff & Chandler, 1975). Esta perspetiva tem sido reconhecida como central na compreensão dos assuntos relativos à saúde na família (Fiese & Sameroff, 1989).

Enquanto sistema aberto e auto-organizado, a família estabelece trocas permanentes com o exterior (Von Bertalanffy, 1969), tendo capacidade para se adaptar às alterações nas circunstâncias contextuais que a envolvem, regulando a sua abertura com movimentos

centrípetos ou centrífugos, de acordo com as suas necessidades e características (Alarcão, 2000). Na recursividade de interações em que está permanentemente envolvida, há momentos em que a família tem de manter a sua coerência e estabilidade, corrigindo os efeitos dos fatores externos ou internos que poderiam modificar o seu equilíbrio por via de mecanismos de regulação auto-correctivos; há outros em que tem de desenvolver mudanças qualitativas, que possibilitem o crescimento e a criatividade do sistema (Alarcão, 2000). O diagnóstico de uma condição crónica de saúde pode-se integrar no segundo caso já que introduz uma mudança de segunda ordem no sistema.

Duas outras propriedades da família enquanto sistema indicam que objetivos ou resultados diferentes podem ser atingidos a partir de condições iniciais iguais (multifinalidade) e que um mesmo objetivo ou resultado pode ser atingido a partir de condições iniciais diferentes (equifinalidade)(Alarcão, 2000). Em termos práticos, estas duas assunções ajudam a compreender o facto de famílias confrontadas com um mesmo fator de stress (e.g., diagnóstico de uma doença) seguirem trajetórias de adaptação diferentes, e de famílias que à partida apresentavam condições distintas em termos socioeconómicos, e de estrutura e ambiente familiar, poderem alcançar resultados de adaptação positivos. Estas observações impelem os investigadores a identificar os fatores individuais e familiares que explicam essa variabilidade.

3.1.2 Psicologia Pediátrica

De acordo com a versão mais recente do *Handbook of Pediatric Psychology*, o campo da Psicologia Pediátrica:

Inclui a investigação e a prática clínica em torno de questões relacionadas com o desenvolvimento físico e psicológico, saúde e doença, que afetam crianças, adolescentes e respetivas famílias. Trata-se de um campo multifacetado, onde os psicólogos pediátricos exploram as relações entre a saúde física e psicológica, e o bem-estar de crianças e adolescentes, enquadrada numa perspetiva desenvolvimental, que toma em consideração a criança como inserida num conjunto de contextos, da família, prestadores de cuidados de saúde, sistema de saúde, escola, aos pares e à comunidade. (Aylward & Lee, 2017, p. 3)

Do ponto de vista de orientação teórico-conceitual, trata-se de uma área interdisciplinar e eclética, que nasce do reconhecimento da insuficiência do modelo biomédico para a medicina e da progressiva consolidação do modelo biopsicossocial de saúde e de doença, marcado por uma visão mais holista da saúde (Melamed, 2002; Ronen et al., 2003a). Outra das bases fundacionais da Psicologia Pediátrica é a perspetiva desenvolvimental, que apela para a necessidade de se pensar a criança como um ser em desenvolvimento e transformação acelerados, e de atender às descontinuidades cognitivas e socioemocionais que esse mesmo desenvolvimento pressupõe (Barros, 2003). Assim, neste campo, é incontornável enquadrar a compreensão, identificação, avaliação e intervenção no contexto do desenvolvimento infantil normativo (Holmbeck, 2002a). Subjaz a estes pressupostos uma perspetiva de ciclo de vida que valoriza a necessidade de compreender as características de cada fase para definir os problema

de saúde, as doenças mais prováveis em cada momento desenvolvimental, assim como o impacto diferenciado dessas doenças em cada período do ciclo de vida, aliada a uma perspectiva sociocognitiva do desenvolvimento, no sentido de compreender como é que as mudanças em diferentes dimensões do desenvolvimento se relacionam com a capacidade das crianças para compreenderem as suas experiências de saúde e de doença, causas, consequências, possibilidade de a controlar ou curar (Barros, 2003; Menezes, Moré, & Barros, 2008).

Na atualidade, uma das principais áreas de interesse da Psicologia Pediátrica são as condições crónicas de saúde pediátricas (CCSP) (Stein, Bauman, Westbrook, Coupey, & Ireys, 1993). Stein e colaboradores (1993) definem CCSP como uma condição que 1) tem duração igual ou superior a um ano; 2) requer tratamento e tecnologia especializada; 3) produz uma ou mais das seguintes sequelas: limitações na funcionalidade, atividade ou sociabilidade dos doentes em comparação com os pares da sua idade, nas áreas do desenvolvimento físico, cognitivo, emocional ou social; dependência de mecanismos compensatórios como forma de colmatar as limitações na funcionalidade (medicação, dieta especial, tecnologia médica, assistência pessoal, aparelhos compensatórios); necessidade continuadas de recorrer a apoio prestados por equipas de saúde multidisciplinares (médicos, enfermeiros, psicólogos, terapeutas da fala, professores de educação especial, entre outros), com uma frequência e intensidade muito para além do que é usual para crianças da sua idade; ou de recorrer a tratamento ou intervenções prolongadas. De uma forma genérica, integram situações de saúde geralmente irreversíveis, incuráveis ou prolongadas no tempo, que exigem cuidados e assistência especializada continuada ou com uma magnitude superior à geralmente requerida pela maioria das crianças, bem como uso regular de medicação ou de equipamento especial (A. L. Stanton, Revenson, & Tennen, 2007). O foco do tratamento é no controlo dos sintomas e na gestão da doença, e não na cura.

O número de crianças e adolescentes afetado por CCSP aumentou nas duas últimas décadas. Estima-se que entre 13 a 20% das crianças e adolescentes que vivem atualmente nos países ocidentais terão de crescer com condições crónicas de saúde, de índole física, mental ou desenvolvimental (Bethell, Read, Blumberg, & Newacheck, 2008; Van Cleave, Gortmaker, & Perrin, 2010). Estudos prospetivos revelam que a experiência de uma CCSP provoca disrupções significativas na vida dos doentes em múltiplos domínios da vida, ao longo do curso e trajetória da doença, e que ultrapassam em muito o domínio físico, integrando também as dimensões interpessoais, comportamentais, emocionais, cognitivas e académicas (Harper, 1991).

3.2 A epilepsia conceptualizada como uma condição crónica de saúde pediátrica

A epilepsia pode ser considerada uma condição crónica de saúde. Apesar da sua natureza episódica, a epilepsia constitui uma fonte de stress continuado não só para a criança, mas também para a sua família, passível de acarretar desafios acrescidos e permanentes nos domínios da saúde

física, social, emocional e académica das crianças (Austin et al., 2015; Ronen et al., 2003a) mesmo bastante tempo após o início da condição de saúde, e independentemente do controlo clínico das crises ter sido conseguido (Shore, Buelow, Austin, & Johnson, 2009; Y. Wu, Follansbee-Junger, Rausch, & Modi, 2014). Viver com a epilepsia significa ter de lidar com a natureza imprevisível das manifestações e do curso e gravidade da condição de saúde; munir-se de informação pertinente de modo a saber lidar, caso ocorra uma crise, com o risco acrescido de traumatismos físicos graves no decurso da mesma; lidar com o desconhecimento e com as ideias pré-concebidas da comunidade em geral em torno da doença, designadamente com o estigma social (Austin, Hesdorffer, Liverman, Schultz, & Testimony, 2012; Jacobs & Jensen, 2012; Lambert, Gallagher, O'Toole, & Benson, 2014).

Pelas suas características de permanência e impacto a diferentes níveis, a epilepsia implica um envolvimento ativo das famílias na gestão da doença (Austin, 1996). Os pais commumente reportam restrições nas atividades familiares e isolamento (Painter, Rausch, & Modi, 2014); dificuldades na obtenção de suporte social mais extenso (Austin, 1990); dificuldades em gerir as comorbilidades comuns na epilepsia pediátrica (Austin et al., 2011); dificuldades em trabalhar de modo efetivo com os prestadores de cuidados de saúde (McNelis, Buelow, Myers, & Johnson, 2007; K. Wu et al., 2008); necessidades não atendidas de apoio emocional e de informação, que persistem por meses e anos após o diagnóstico inicial (Shore et al., 2009) bem como elevada morbilidade psiquiátrica entre membros da família (Ferro & Speechley, 2009; C. Jones & Reilly, 2016). Em contrapartida, as iniciativas levadas a cabo no contexto familiar relativas à gestão quotidiana da epilepsia implicam o envolvimento articulado de vários elementos da família, podendo acarretar alterações de papéis, rotinas e representar fonte de sobrecarga a vários níveis, designadamente a nível emocional e financeiro (McNelis et al., 2007; Shore et al., 2009). A criança e sua família são assim confrontadas com situações e problemas diferentes dos vividos por indivíduos saudáveis, por tempo indeterminado (Mullins et al., 2015), situações que exigem reajustamentos contínuos e que podem interferir com a realização de atividades tidas como desenvolvimentalmente esperadas (Wallander & Varni, 1998). Nesta medida, o conceito de adaptação é central para a compreensão do impacto desta condição.

3.3 Conceito de adaptação

O conceito de adaptação é amplamente utilizado em Psicologia. Não há, porém, uma definição consensual de adaptação, nem uma forma consensual de avaliar este construto. Partindo de uma perspetiva desenvolvimental ecológica Soares (2000) define adaptação bem-sucedida ou competente como “uma integração adaptativa dentro e entre os domínios biológico, emocional, comportamental e social, permitindo ao indivíduo dominar os desafios e exigências

desenvolvimentais com que se confronta no presente e promover a adaptação futura ao ambiente” (p. 22-23).

No contexto das condições crónicas de saúde, a maioria das definições de adaptação aludem à ausência de perturbação psicológica, sintomas psicológicos ou afeto negativo (A. L. Stanton et al., 2007). Esta tendência é consistente com uma visão tradicional do impacto das condições crónicas de saúde, centrada nos défices (Harper, 1991). No entanto, apesar da presença ou ausência de sintomas psicológicos poderem fazer parte da adaptação, constituem apenas um dos muitos indicadores possíveis. De uma extensa revisão de literatura realizada em torno das conceptualizações de adaptação psicológica no contexto da doença crónica, Stanton e colegas (2007) destacaram três atributos relevantes para caracterização do conceito de adaptação: (1) a natureza multifacetada da adaptação, demonstrativa da experiência da doença crónica implicar a adaptação em múltiplos domínios de vida; (2) o facto de a adaptação constituir um processo dinâmico ao longo da trajetória da doença crónica, em resultado de mudanças tanto a nível físico (agravamento da sintomatologia, ineficácia da medicação, tipo de sintomas), como em outros domínios da vida dos doentes (e.g., social, alterações na situação escolar), que requerem readaptações sucessivas; (3) e o facto de existir ampla heterogeneidade nos resultados de adaptação evidenciados por indivíduos confrontados com a mesma doença crónica.

Na literatura, as designações adaptação e ajustamento são frequentemente utilizadas de forma indistinta, como sinónimos (Mullins et al., 2015). No âmbito deste trabalho optámos por privilegiar o recurso ao termo adaptação, por três motivos. Em primeiro lugar, o termo ajustamento tem implícita a ideia de retorno a um estado de equilíbrio inicial através de movimentos auto-correctivos, e mais próximo da dimensão estritamente psicológica de funcionamento (Harper, 1991; Kupst, 1994). Em segundo lugar, o termo adaptação é uma designação mais convergente com uma conceptualização multidimensional e dinâmica da perspetiva sistémica recente, onde a adaptação é encarada numa dupla perspetiva de resultado e de processo, capaz de integrar a realidade de serem possíveis respostas diferentes em fases distintas da doença ou do desenvolvimento da criança e da família (Barros, 2003; A. L. Stanton et al., 2007), conceptualização que está patente em vários estudos na literatura da Psicologia Pediátrica (e.g., Kazak, 1989; Thompson & Gustafson, 1996; Wallander et al., 1989). Em terceiro lugar, baseámo-nos ainda na distinção entre ajustamento e adaptação proposta no âmbito do modelo de stress familiar, ajustamento e adaptação (McCubbin & McCubbin, 1991). Segundo esse modelo, ajustamento e adaptação são consideradas duas fases distintas no processo de confronto familiar com o stress de uma doença crónica. Numa fase inicial, designada de ajustamento familiar, o confronto com a doença leva a que a família lute para manter os padrões de interações atuais, regras e papéis, ativando recursos como o suporte social, rotinas e rituais familiares. Numa fase posterior (adaptação), em face dos desafios excessivos provocados pelos

stressores, ou pela delapidação de recursos que entretanto sofreu, a família vai envolver-se em mudanças nos padrões de funcionamento familiar prévios (regras, fronteiras, estratégias de *coping*), no sentido de encontrar um novo equilíbrio, passível de viabilizar níveis superiores de estabilidade funcional e satisfação familiar. Em suma, a adaptação constitui um processo cujo resultado pode ser localizado num continuum que vai da adaptação ótima para a inadaptação.

3.4 Família e adaptação no contexto da epilepsia

A família constitui um sistema privilegiado e incontornável para perceber a adaptação no contexto de uma condição crónica de saúde como a epilepsia. No entanto, tradicionalmente, a literatura em torno do impacto das CCSP começou por adotar um foco quase exclusivo nas variáveis individuais das crianças, assumindo-se que estas inevitavelmente exibiriam défices (e.g, emocionais, cognitivos e comportamentais) e que quanto mais grave e incapacitante fosse uma doença, mais graves as respetivas consequências (Harper, 1991). Esta abordagem determinista, centrada na documentação da patologia para posterior correção dos défices identificados, proporcionou visões acontextuais e tendencialmente negativas das implicações das várias condições de saúde na vida das crianças, desconsiderando a análise do sistema familiar (Melamed, 2002).

Ao longo das últimas quatro décadas tem-se assistido a uma evolução conceptual e prática na forma de compreender e apoiar as crianças com CCSP, passando-se de uma abordagem centrada nos défices intrapessoais, para uma abordagem centrada nas famílias, e nos recursos e competências dos indivíduos e da família como um todo (Mullins et al., 2015; Rolland & Walsh, 2006). Para esta mudança, muito contribuíram dois tipos de evidências empíricas. Por um lado, as que questionaram a existência de uma relação direta e generalizável entre parâmetros clínicos da CCSP (e.g., gravidade das manifestações sintomáticas) e o nível de adaptação conseguido (Eiser, 1997; Holmbeck, Coakley, Hommeyer, Shapera, & Westhoven, 2002; Wallander et al., 1989), designadamente na área da epilepsia pediátrica (Austin & Caplan, 2007; Lach et al., 2006). Por outro, as que mostraram que apesar das crianças com CCSP e familiares, designadamente crianças com epilepsia e seus pais, constituírem um grupo de risco acrescido de problemas de adaptação, a grande maioria não revela sinais de desajustamento psicológico clinicamente significativo, constituindo a adaptação positiva mais a regra, do que a exceção (Drotar, 1997; Harper, 1991). Tais evidências têm alicerçado um olhar mais positivo sobre as crianças com CCSP e suas famílias e sobre os desafios não-normativos que enfrentam. Assim, e apesar da experiência de sofrimento psicológico poder caracterizar, em parte, um processo de adaptação individual no contexto de uma CCSP, este é igualmente pautado pela mobilização de recursos psicológicos e sociais (e.g., resolução de problemas; regulação

emocional; suporte social) que permitem ao indivíduo e sua família fazer face às mudanças ou situações de vida em causa (A. L. Stanton et al., 2007).

Em paralelo tem-se verificado uma incorporação crescente do referencial sistémico por parte dos investigadores e clínicos na área da Psicologia Pediátrica (Alderfer & Rourke, 2010), patente na preocupação em perspetivar a compreensão e intervenção com crianças com CCSP no contexto da família, e na adoção de uma abordagem de cuidados de saúde centrados na família (Ferro, 2014; Fiese, Spagnola, & Everhart, 2008). Se, por um lado, uma CCSP é passível de interferir com o funcionamento familiar normativo, e nessa medida causar impacto negativo, desgastar os recursos familiares disponíveis, ou gerar padrões disfuncionais; por outro, importa reconhecer que ao longo do percurso da doença e dos desafios que se vão impondo, a família como um todo proporciona uma estrutura de apoio no interior da qual os seus membros individuais poderão cumprir tarefas básicas e necessárias tanto a nível individual, como de grupo, designadamente a resolução de problemas, a comunicação de necessidades afetivas e instrumentais, a alocação de papéis e responsabilidades e a prestação de cuidados básicos (Barakat, Kunin-Batson, & Kazak, 2003; Dickstein, 2002). As crianças dependem da família em termos de tomada de decisão terapêutica e de comunicação com os prestadores de cuidados de saúde, sendo incontornável a sua inclusão no processo de acompanhamento (McNelis et al., 2007). A adaptação bem-sucedida requer da parte da criança e seus pais capacidade para responderem de forma satisfatória ao conjunto de novos desafios relacionadas com a entrada da epilepsia nas suas vidas, ao mesmo tempo que lidam com as tarefas típicas da fase de desenvolvimento individual e familiar em que se encontram (Austin, 1996). As crianças com CCSP e suas famílias são progressivamente percecionadas como pessoas e famílias como as outras, confrontadas com circunstâncias excecionais de vida, às quais têm de se adaptar (Eiser, 1990). Privilegia-se, hoje em dia, uma abordagem que valoriza as competências e recursos da família, percebidos como modificáveis, passíveis de promover a adaptação das crianças e famílias, em detrimento do foco nos défices e dificuldades familiares (Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009; Rolland & Walsh, 2006).

3.5 Modelos conceptuais de adaptação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas

3.5.1 Questões gerais

A constatação da variabilidade nos resultados de adaptação individual em crianças com CCSP catapultou o desenvolvimento de um conjunto diversificado de modelos teóricos-conceituais de compreensão dos processos de adaptação. Os modelos mais influentes denotam uma forte inspiração da teoria dos sistemas familiares (Mullins et al., 2015). Constituem exemplos de modelos a este nível o modelo sistémico e socioecológico de adaptação e mudança

(Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), o modelo de risco-resistência (Wallander & Varni, 1998), o modelo transacional de *stress* e *coping* (Thompson & Gustafson, 1996), o modelo sistémico de adaptação à doença crónica de Rolland (1994), o modelo ABC-X duplo de *stress* familiar (McCubbin & Patterson, 1983), e o modelo transacional do funcionamento familiar adaptado ao contexto das CCSP (Fiese & Sameroff, 1989). Estes modelos tendem maioritariamente a ser genéricos, i.e., aplicáveis a um conjunto vasto de condições crónicas de saúde, fundados numa lógica não-categorial do impacto das CCSP⁵. Passamos de seguida à caracterização mais aprofundada do modelo que assumiu particular relevância no desenvolvimento da nossa investigação: o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009).

3.5.2 Modelo socioecológico de adaptação e mudança

O modelo desenvolvido por Anne Kazak constitui a aplicação da teoria ecológica do desenvolvimento humano de Bronfenbrenner (1979) ao contexto das condições crónicas de saúde pediátricas⁶. Em contraste com a maioria da investigação nas CCSP, historicamente focada na criança ou na díade criança-pai/mãe, o modelo socioecológico encoraja a incorporação de um número mais alargado de sistemas na compreensão do contexto desenvolvimental da criança com CCSP (Kazak, Segal-Andrews, & Johnson, 1995), proporcionando um referencial para compreender as formas complexas nas quais os sistemas relevantes na vida dos pacientes pediátricos e as suas famílias interagem para moldar o desenvolvimento e a adaptação (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009). Para além dos contextos habituais de interação como a escola ou o trabalho, nas famílias com filhos com condições crónicas de saúde, os contextos dos cuidados de saúde adquirem um papel importante na ecologia da vida familiar (Barakat et al., 2003). As crianças com CCSP têm de lidar com as implicações e preocupações adicionais relacionadas com a saúde e o respetivo tratamento, ao mesmo tempo que continuam a crescer e a se desenvolver.

⁵ A abordagem psicológica das condições crónicas de saúde pediátricas tem seguido principalmente duas perspetivas: uma categorial, focada no impacto associado a uma condição de saúde específica (*condition-specific*, no original inglês), e uma não-categorial (*generic*, no original inglês), que defende que apesar da especificidade de cada doença e da diversidade de tratamentos, existem comunalidades consideráveis ao nível implicações psicossociais de diferentes doenças (Barros, 2003). Autores como Stein e Jessop (1993), e Rolland (1994), sugerem que diferentes doenças são susceptíveis de partilhar dimensões genéricas como a natureza e curso da doença (contínua vs. episódica), prognóstico, intrusividade dos tratamentos, visibilidade dos sintomas e estigma social, entre outras características; e que a forma como estas dimensões genéricas interagem com as variáveis individuais e do contexto poderão ter uma influência mais significativa na adaptação do que o diagnóstico médico *per se*. Adotando uma perspetiva de complementaridade, a perspetiva categorial-modificada das CCSP reconhece que apesar das transversalidades nos impactos entre as várias condições saúde na infância, são de esperar algumas especificidades, decorrentes das particularidades impostas por cada doença (Thompson & Gustafson, 1996).

⁶ A teoria do desenvolvimento humano de Urie Bronfenbrenner sofreu alterações desde a sua formulação inicial, nos anos 70, até à morte do autor, em 2005 (Rosa & Tudge, 2013; Tudge, Mokrova, Hatfield, & Karnik, 2009). O modelo inicial, designado de ecológico, focava-se maioritariamente no papel das influências contextuais no desenvolvimento, conceptualizadas em quatro níveis sistémicos, do micro ao macro (Bronfenbrenner, 1979). Em meados da década de 90, o autor propõe reformulações no modelo, sendo enfatizado o papel ativo dos sujeitos no seu próprio desenvolvimento, através dos processos proximais, concebidos como mecanismo primário de desenvolvimento. O grande objetivo do modelo, daí em diante designado de bioecológico, passa a ser o de explicar o modo como as características das pessoas, o contexto (do mais imediato ao mais remoto) e o tempo histórico influenciam, de forma mútua, esses processos proximais (Bronfenbrenner & Morris, 2006).

O progresso desenvolvimental destas crianças pode ser afetado pela interferência das exigências do tratamento, por vezes requerendo a suspensão, negociação ou adiamento das tarefas normativas em curso (Kazak et al, 2003).

Graficamente (ver Figura 2), e de acordo com o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, Rourke, & Crump, 2003; Kazak et al., 2009), a criança é colocada ao centro de uma série de círculos concêntricos e interativos, que representam contextos sucessivamente mais abrangentes da ecologia social da criança, e com os quais está envolvida de forma progressivamente mais indireta. No nível mais proximal deste modelo, o microssistémico, encontram-se a criança e os indivíduos e contextos com influência direta sobre ela (Kazak et al., 2009); ou seja, integra as interações permanentes e recíprocas com os pais, irmãos, professores, colegas, prestadores de cuidados de saúde, nos contextos imediatos da criança – família, escola, os serviços de saúde; bem como os respetivos subsistemas, designadamente o parental ou o filial. De acordo com o modelo socioecológico, as características da doença, e do respetivo tratamento, constituem um microssistema importante na vida das crianças e das suas famílias (Kazak et al., 2009; Kazak et al., 1995). Mesmo para um mesmo diagnóstico, parâmetros como a gravidade da doença, a eficácia do tratamento no controlo dos sintomas ou o tempo decorrido desde o diagnóstico, podem variar amplamente de criança para criança, colocando exigências muito distintas às famílias (Steele & Aylward, 2009).

As interações que ocorrem nos microssistemas constituem as fontes de influência mais proximais no bem-estar das crianças no contexto da doença. Por isso também, a maior parte da investigação conduzida tem-se focado no nível microssistémico (Steele & Aylward, 2009).

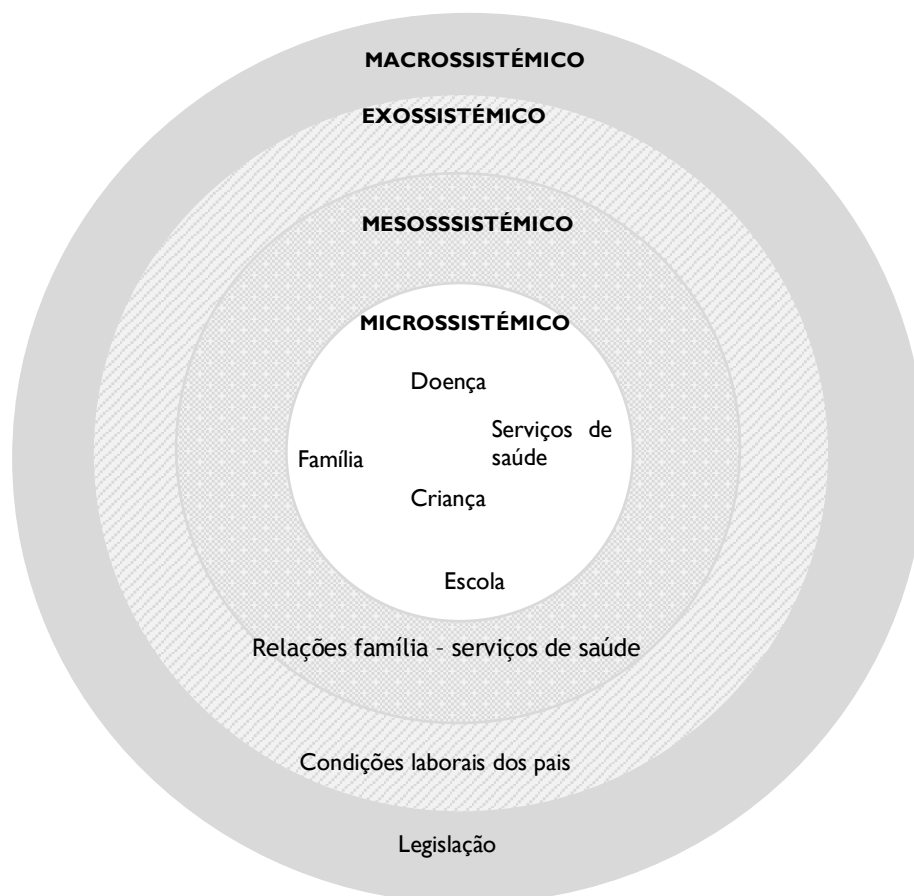


Figura 2 –Níveis sistémicos do modelo socioecológico de adaptação e mudança (adapt. de Kazak et al, 2003)

O nível mesossistémico inclui as interações entre dois ou mais microssistemas, por exemplo as relações família – serviços de saúde, relações família -escola ou relações criança-doença. Questões como as decisões e escolha de tratamento, a maturação educativa ou o nível percebido de qualidade de saúde prestados podem influenciar de forma significativa o estado de saúde da criança, seja por via da adesão terapêutica, da performance académica ou do funcionamento social (Steele & Aylward, 2009). Em contrapartida, crianças com um temperamento difícil, limitações funcionais comórbidas como défice cognitivo, atrasos no desenvolvimento da linguagem ou problemas de comportamento e/ou aprendizagem, poderão afetar as atitudes e comportamentos de pais e filhos face a um diagnóstico de epilepsia, assim como a respetiva adaptação individual e familiar (Austin, 1996). Para além disso, o significado, desafios associados com uma condição de saúde como a epilepsia, e o modo como é percebida e gerida ao longo do tempo, muda com o desenvolvimento da criança e com as próprias mudanças desenvolvimentais da família, i.e., com a sucessão de acontecimento normativos e não-normativos com que se vai defrontando (Kazak, 1989, 1992). A manutenção ao longo do tempo de atitudes parentais positivas em relação à gestão efetiva da epilepsia e ao respetivo tratamento

foi apontada como um dos preditores mais importantes de adaptação bem-sucedida em pais e filhos (Austin, 1996).

As complexas interações entre os microsistemas que constituem os mesossistemas não ocorrem num vácuo. Num nível mais distal –exossistémico- encontram-se os sistemas nos quais a criança não participa diretamente, mas que indiretamente afetam o seu desenvolvimento e adaptação, nomeadamente, por via da rede de relações da família (Kazak et al., 2009). Para as crianças no contexto de uma condição crónica de saúde, exossistemas relevantes podem incluir as condições laborais dos pais ou grupos formais/informais de apoio mútuo para pais, passíveis de influenciar o nível de stress parental; ou o clima organizacional da equipa de saúde que presta apoio à criança, suscetível de afetar a qualidade dos cuidados de saúde prestados à criança (Kazak et al., 2003). A existência de equipas de saúde, capazes e disponíveis para prestarem serviços de qualidade, avaliando as necessidades específicas de cada família constitui uma importante influência no processo de adaptação (Austin, 1996). Dada a importância da qualidade da prestação de cuidados proporcionada à criança com CCSP, e do facto da maior parte desta prestação de cuidados ser proporcionada pelos pais, é crucial atender à ecologia social dos pais, que pode, indiretamente influenciar a qualidade dos cuidados prestados à criança (Steele & Aylward, 2009).

O nível mais externo, o macrossistémico, inclui o impacto da cultura, da legislação e das representações sociais em torno da doença. Compreender o modo como os sistemas mais vastos constroem ou apoiam a adaptação familiar durante o curso da doença é crucial para o desenvolvimento de intervenções efetivas (Kazak et al., 2009). O modelo socioecológico de adaptação e mudança hipotetiza que os fatores mais distais (políticos, culturais) exercem a sua influência no desenvolvimento da criança, ao influenciarem os contextos no interior dos quais as influências proximais operam (e.g., relação com os pais) (Steele & Aylward, 2009). A cultura e a etnicidade têm um importante papel no moldar de valores e crenças que estão embebidas no sistema familiar. Os efeitos das atitudes discriminatórias em relação às pessoas com epilepsia constituem exemplos de influência macrossistémica negativa no desenvolvimento da criança. Pode ainda referir-se ao impacto das crises socioeconómicas, da organização e cobertura do sistema nacional de saúde, com implicações no tipo de apoios e serviços médicos e terapêuticos disponíveis ou acessíveis à criança e família.

Em suma, a realidade da CCSP envolve não só a criança, como todo o sistema familiar, que é em simultâneo território de impacto e fator de influência, num contexto multideterminado de fatores de influência, situados a diferentes níveis sistémicos, passíveis de promover ou dificultar a adaptação à CCSP (Drotar, 1997; Kazak, 1992; Wallander & Varni, 1998). O impacto de uma CCSP depende, não só, das características da CCSP, mas sobretudo da interrelação entre a criança, as características da doença, a família, e os contextos sociais e ambientais mais vastos

no qual a criança está inserido, e onde a criança tem um papel ativo; bem como das crenças e percepções individuais e partilhadas pelos membros da família (Alderfer & Rourke, 2010; Barakat et al., 2003; Kazak, 1992). Crianças e pais respondem de modo distinto aos desafios adicionais impostos por uma mesma CCSP porque cada família é confrontada com um conjunto singular de desafios, e porque detém forças e fragilidades particulares, numa equação que vai variando ao longo do tempo (Austin, 1996).

Ao proporcionar um mapa para examinar o contexto desenvolvimental da criança com CCSP, o modelo permite identificar, nos distintos níveis sistémicos, fontes de constrangimento ou de apoio à adaptação no curso da doença, bem como elencar potenciais intervenções com vista a melhorar a adaptação da criança e seus familiares (Barakat et al., 2003).

4 Resultados e fatores de influência na adaptação de crianças com epilepsia e seus pais

4.1 Resultados de adaptação: Breve caracterização e principais indicadores

4.1.1 Adaptação individual das crianças

Para uma criança em desenvolvimento, crescer com uma condição crónica de saúde como a epilepsia, acarreta um conjunto de desafios adicionais passíveis de gerar sobrecarga, incerteza e um sentido de *diferença* indesejado. O impacto da epilepsia na vida das crianças pode ser equacionado a múltiplos níveis: físico (e.g., fadiga excessiva); realização académica e cognitiva (e.g., aprendizagem inconsistente); comportamental e emocional (e.g., sobrecarga emocional motivada pela imprevisibilidade das crises) e social (e.g., percepção de estigma, isolamento social) (Elliott, Lach, & Smith, 2005; Ramsey, Loiselle, Rausch, Harrison, & Modi, 2016). Apesar das dificuldades e desafios acrescidos associados a uma condição de saúde como a epilepsia, a grande maioria das crianças e adolescentes no contexto da epilepsia apresenta níveis de adaptação globalmente positivos (Loiselle, Ramsey, Rausch, & Modi, 2016; Speechley et al., 2012). Neste contexto, e apesar da longa tradição de recurso a medidas de desajustamento psicológico, a consideração de indicadores de adaptação positivos e multidimensionais assume particular relevância, sendo coerente com a mudança operada pela WHO, ao nível de uma nova conceptualização de saúde, definida como “um estado de completo bem-estar físico, mental e social, e não meramente ausência de doença ou enfermidade” (WHO, 1946, p. 1315). Neste âmbito, surge como muito relevante o conceito qualidade de vida (QdV), definido como “perceção do individuo acerca da sua posição na vida no contexto da cultura e sistema de valores nos quais ele vive e em relação aos seus objetivos, expetativas, padrões e preocupações” (WHOQOL Group, 1995, p. 1405).

Esta definição expressa o duplo foco na subjetividade e na multidimensionalidade do conceito. Enquanto construto multidimensional, a QdV engloba a saúde física da pessoa, o seu estado psicológico, o grau de independência, as interações sociais, as crenças pessoais e a relação do indivíduo com o seu ambiente envolvente. Enquanto construto subjetivo, o conceito de QdV enfatiza o facto da percepção de QdV ser algo individual, ou seja, duas pessoas com uma condição de saúde aparentemente similar, podem avaliar a sua QdV de uma forma muito diferente. Durante as últimas décadas, o conceito de qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVRS) – um subdomínio do construto mais geral de QdV e definida como a percepção do indivíduo acerca dos vários aspetos da sua vida que são afetados por uma condição de saúde particular e respetivos tratamentos (Lach et al., 2006; Ronen, Streiner, & Rosenbaum, 2003b), converteu-se num território amplamente investigado na área das CCSP, designadamente na epilepsia, sendo considerado um indicador por excelência do impacto da condição de saúde e respetivos

tratamentos na vida da criança, bem como um indicador importante para a tomada de decisões clínicas (Ferro, 2014; Ronen et al., 2003a).

Os resultados dos estudos comparativos que se focam na QdVRS das crianças com epilepsia têm sido relativamente consistentes. Mesmo nos países industrializados do ocidente, onde a maioria das crianças beneficia de tratamento médico apropriado e consegue um eficaz e rápido controlo das crises, estas crianças estão em risco acrescido de apresentarem níveis inferiores de QdVRS, sobretudo nos domínios emocional, comportamental, social e académico (Austin et al., 2011; Fastenau et al., 2004), designadamente quando comparadas com crianças da população em geral (V. Miller, Palermo, & Grewe, 2003; Modi, 2009), ou com outras condições crónicas de saúde (e.g., asma, diabetes) (Austin, Huberty, Huster, & Dunn, 1998; Hoare, Mann, & Dunn, 2000). Este risco ainda é mais elevado no subgrupo de crianças em que a epilepsia está associada com atraso global do desenvolvimento ou no caso das epilepsias refratárias (Cheung & Wirrell, 2006; Haneef et al., 2010). Para estes casos, a literatura destaca prevalências acrescidas de sintomatologia psicopatológica, designadamente dificuldades emocionais, problemas de comportamento e atenção (Davies, Heyman, & Goodman, 2003; Hamiwka & Wirrell, 2009; Rodenburg et al., 2005).

Estudos longitudinais recentes possibilitaram uma melhor compreensão da evolução das trajetórias das várias dimensões que integram a QdVRS das crianças com epilepsia (e.g., Ferro et al., 2013; Ramsey et al., 2016). Apesar da maioria das crianças com epilepsia apresentar níveis de funcionamento globalmente adequados no final dos dois primeiros anos após o diagnóstico, uma percentagem significativa das crianças evidencia dificuldades persistentes em domínios específicos da vida diária (físico, emocional, académico, neurocognitivo, social), mesmo nos casos em que se registavam melhorias no controlo clínico das crises e na minimização dos efeitos secundários dos fármacos antiepiléticos (Ferro et al., 2013; Ramsey et al., 2016). As trajetórias de QdVRS das crianças com epilepsia apresentam relativa consistência ao longo do tempo, com as mudanças mais importantes a decorrem até aos 6-12 meses após o diagnóstico (Ramsey et al., 2016; Speechley et al., 2012). Os estudos longitudinais dão ainda conta de importantes implicações negativas a longo-prazo ao nível da escolaridade, empregabilidade e ajustamento social, mesmo quando o diagnóstico médico sugere evolução favorável, e se consegue um rápido controlo das crises (Sillanpaa & Schmidt, 2009). Quando são os pais a avaliar a QdVRS dos filhos (hetero-relatos), aqueles reportam níveis inferiores relativamente ao reportado pelos próprios filhos, nos diferentes domínios da QdVRS (Ferro et al., 2017; Ingerski et al., 2010; Ronen et al., 2003b).

A perspetiva pessoal das crianças com epilepsia, relativa aos desafios adicionais impostos pela presença da condição nas suas vidas, tem merecido atenção crescente da parte dos investigadores na área psicossocial (Chong et al., 2016; Elliott et al., 2005; Moffat, Dorris,

Connor, & Espie, 2009). Contrariamente à investigação quantitativa que adota medidas previamente definidas de construtos conhecidos, a investigação qualitativa dá primazia à perspetiva subjetiva dos pacientes, possibilitando a emergência de temas e conteúdos inexplorados. Estudos qualitativos realizados com adolescentes com epilepsia refratária à medicação referem como preocupações: o embaraço com a perda do controlo corporal (e o medo da morte) na altura das crises; a perda de privacidade; a sobrecarga e (in)eficácia da medicação; inconsistências no atendimento médico realizado no sistema de saúde ao longo do tempo (múltiplos técnicos envolvidos; mudanças de técnicos); a maior vulnerabilidade a sentimentos de inferioridade e discriminação; o sentimento de diferença e a necessidade de reconquista de um sentido de normalidade (Chong et al., 2016; Collins, 2011; Elliott et al., 2005).

4.1.2 Adaptação individual dos pais

A literatura e investigação na área pediátrica têm dado uma importância crescente ao estudo do impacto da epilepsia na saúde mental e QdV dos pais de crianças com epilepsia. As evidências empíricas disponíveis indicam que estes pais se encontram sujeitos a níveis elevados de desgaste físico e psicológico (Ferro & Speechley, 2009; Pei-Fan, 2005), e que apresentam um risco acrescido de sintomatologia psicopatológica, designadamente sintomas de ansiedade e depressão (C. Jones & Reilly, 2016; Pekcanlar-Akay et al., 2011), mesmo quando comparados com mães cujos filhos apresentam outras condições de saúde pediátricas como a asma (Chiou & Hsieh, 2008). Mais concretamente, entre 30 a 50% das mães confrontadas com um diagnóstico de epilepsia nos filhos encontram-se em risco desenvolver uma perturbação depressiva, uma proporção significativamente superior à apresentada por mães de crianças da população geral (Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011b; Ferro & Speechley, 2009). O mesmo se verifica em relação à presença de sintomas de ansiedade, onde a percentagem de pais com valores de ansiedade clinicamente significativos varia entre os 9 e os 58%, consoante os estudos (e.g., Chapieski et al., 2005; C. Jones & Reilly, 2016). Relativamente ao indicador Qualidade de Vida (QdV) dos pais, os estudos são mais escassos, no entanto a evidência empírica disponível reporta níveis inferiores de QdV entre pais de crianças com epilepsia, quando comparados com os pais da população geral (Hatzmann, Heymans, Ferrer-i-Carbonell, van Praag, & Grootenhuis, 2008; Lv et al., 2009).

Quando os pais se convertem no foco da investigação pediátrica, o principal objetivo tem sido o de descrever a adaptação parental no contexto da doença da criança e respetivos tratamentos. Menos estudado têm sido as formas como as atitudes, humor, comportamento dos pais promovem ou comprometem os resultados de saúde dos filhos (Kazak et al., 2009). O estudo da adaptação psicossocial de pais de crianças com condições crónicas de saúde é importante em si mesmo e também devido ao seu importante papel na adaptação e dos seus filhos. Em contrapartida, a adaptação dos pais de crianças com CCSP é também influenciado pelo

adaptação dos seus filhos (Fiese & Sameroff, 1989). Um número crescente de investigações tem destacado a importância de se examinar e promover a adaptação dos pais (e.g., Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011a). Estudos na área da epilepsia sugerem que a presença de níveis elevados de psicopatologia dos pais é passível de afetar a capacidade destes para lidarem com o stress e com as exigências de cuidar de uma família (Caplan, 2015; Rodenburg, Wagner, Austin, Kerr, & Dunn, 2011; Wagner, Smith, & Ferguson, 2012). A depressão materna tem sido associada a dificuldades no funcionamento familiar, designadamente níveis inferiores de coesão, menor adaptabilidade, desorganização na planificação de atividades familiares, dificuldades na definição, distribuição e coordenação de papéis na família (Dickstein et al., 1998). Pais irritáveis, deprimidos e cansados serão menos tolerantes com as crianças, levando a uma espiral de deterioração das relações familiares. As dificuldades de adaptação dos pais são reconhecidas com um fator de risco acrescido para problemas de ajustamento psicológico e QdV dos seus filhos com epilepsia (Abiodun, 2006; Ferro et al., 2011a; Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2006).

4.2 Fatores de influência na adaptação de crianças com epilepsia e seus pais

Tendo por base o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak et al., 2009), pretende-se, de seguida, examinar as evidências empíricas disponíveis relativamente ao contributo de fatores específicos, selecionados como alvo de interesse para o presente projeto. Dada a complexidade e abrangência deste modelo, optou-se por colocar o foco da revisão em dois microssistemas específicos: a família e a epilepsia. No microssistema familiar serão analisados o sistema familiar como um todo, o subsistema parental e as crianças e os pais individualmente. No microssistema epilepsia serão analisados os fatores gravidade da epilepsia, controlo clínico das crises e tempo desde o diagnóstico. Apesar de apresentados separadamente, considera-se que os diferentes fatores de influência coexistem e interagem reciprocamente com outros níveis sistémicos mais amplos, em consonância com o defendido por este modelo. Por isso, ao longo da revisão serão também apresentados resultados de investigações que resultam do cruzamento de diferentes microssistemas ou dos seus componentes (e.g., gravidade da doença-funcionamento familiar).

4.2.1 Sistema familiar

É hoje amplamente reconhecido, tanto do ponto de vista conceitual, como empírico, que o sistema familiar pode influenciar o processo, curso e resultados da adaptação no contexto de uma CCSP (Kazak et al., 2009; Rolland & Walsh, 2006). Estudos empíricos prévios sugerem que, mesmo no contexto de adversidade, existem competências e recursos no sistema e subsistemas familiares, e que os fatores familiares, para além de não serem tão permeáveis aos efeitos negativos da condição de saúde, parecem comportar uma influência positiva na QdV dos seus membros individuais (Dickstein, 2002). Assim a compreensão destes construtos é um caminho

relevante para a investigação futura que visa informar a estruturação de intervenções práticas (Alderfer & Rourke, 2010; Crespo, Carona, Silva, Canavarro, & Dattilio, 2011).

Porém, conceptualizar e avaliar variáveis familiares, tanto no âmbito do desenvolvimento normativo, como no contexto específico das famílias confrontadas com epilepsia ou outras CCSP, constitui uma tarefa difícil e complexa (Holmbeck & Devine, 2011; Relvas & Major, 2017). Entre os motivos subjacentes, contam-se os seguintes: o sistema familiar integra uma diversidade de componentes e de domínios de funcionamento; o foco de interesse podem ser os indivíduos, as díades, a família como um todo, ou uma combinação destes; no interior da família, uma mesma pessoa desempenha diferentes papéis; e o objeto que estamos a estudar, seja indivíduo ou família no seu todo, está em permanente mudança (Barakat & Alderfer, 2011; Dickstein et al., 1998). Alderfer e colegas (2008) deram um importante contributo ao nível da conceptualização e avaliação das variáveis familiares globais no contexto da investigação psicossocial nas CCSP, ao procederem a uma categorização dos instrumentos de avaliação familiar em três grandes tipos: (1) focados no funcionamento familiar global no contexto geral; (2) focados nas relações familiares diádicas; (3) focados no funcionamento familiar no contexto das CCSP. Os fatores familiares globais gerais focam-se no “todo familiar”, i.e., nas dimensões globais do funcionamento familiar (e.g., coesão familiar; comunicação; organização; capacidade de resolução de problemas), e estão presentes em todas as famílias. As relações familiares diádicas referem-se ao domínio dos subsistemas diádicos no interior do sistema familiar (e.g., pais-filhos, marido-mulher). As variáveis do funcionamento familiar global no contexto das CCSP são restritas às famílias com CCSP, e a sua classificação atende ainda a distinções adicionais, designadamente o grau de especificidade - onde distinguem entre variáveis genéricas, focadas nos desafios psicossociais comuns colocados às famílias com distintas CCSP; e variáveis específicas a uma CCSP, mais sensíveis aos desafios e necessidades de saúde características de uma dada CCSP.

A nível do sistema familiar, no presente trabalho serão analisados: o sistema familiar como um todo, o subsistema parental e as crianças e os pais individualmente. No sistema familiar começamos por fazer referência ao funcionamento familiar global no contexto geral, onde incluímos as variáveis coesão familiar, significado atribuído aos rituais familiares na perspetiva dos pais e dos filhos, bem como ao funcionamento familiar global no contexto das CCSP através da variável gestão familiar das CCSP. Será ainda examinada a influência de uma característica do microsistema familiar, o nível socioeconómico (NSE). No subsistema parental serão analisadas perceções individuais da parentalidade, como a eficácia e satisfação parental.

A nível das variáveis individuais das crianças e dos pais serão analisados o contributo das variáveis perceção de estigma (crianças e pais), orientação para a comparação social (pais) e grupo etário (crianças).

4.2.1.1 *Funcionamento familiar global no contexto geral*

4.2.1.1.1 *Coesão familiar*

Um crescente número de investigações mostra que as variáveis familiares relacionadas com qualidade do ambiente e funcionamento familiares (e.g., mestria familiar, exigências familiares, stress familiar), constituem variáveis predictoras importantes da QdVRS das crianças com epilepsia, exercendo a sua ação independentemente das variáveis clínicas (e.g. Austin et al., 2010; Rodenburg et al., 2006; Y. Wu et al., 2014). A relevância da qualidade do funcionamento familiar parece particularmente importante para as dimensões social e emocional da QdVRS das crianças (Austin et al., 2010; Ramsey et al., 2016). Num estudo longitudinal com início no pós-diagnóstico, Austin e colegas (2010), verificaram que a qualidade do funcionamento familiar exercia um importante papel protetor contra declínios na autoestima das crianças com epilepsia sobretudo no subgrupo com comorbilidades ao nível do funcionamento neurocognitivo. Num outro estudo, o mesmo grupo de investigação (Austin et al., 2011) verificou que os fatores familiares relacionados com o funcionamento e recursos familiares constituíam importantes fatores protetores contra a emergência de problemas de comportamento em crianças com epilepsia, ao longo de um período de três anos com início no pós-diagnóstico. Relativamente aos pais, ambientes familiares apoiantes e positivos têm sido associados a níveis superiores de QdV e ajustamento psicológico (Ferro et al., 2011a, 2011b; Shore, Austin, Huster, & Dunn, 2002). Complementarmente, a insatisfação com as relações familiares, quando conjugada com a presença de problemas de comportamento nas crianças com epilepsia e dificuldades financeiras, constitui um preditor importante da sintomatologia depressiva nas mães cuidadoras. Shore e colegas (2002) hipotetizaram que no contexto de relações familiares conflituosas ou distantes, as mães corriam um risco superior de deprimirem dada a ausência, no agregado familiar, de relações passíveis de funcionarem como amortecedoras, ou que as ajudassem a lidar com o stress familiar.

Estudos comparativos relativos à qualidade do funcionamento familiar contrastando famílias com condições crónicas distintas e famílias da população geral revelaram que, na maioria dos casos, as famílias com CCSP apresentavam um funcionamento tão bom ou melhor do que as famílias da população geral, mostrando sinais de resiliência e sendo capazes de gerir a CCSP com impacto mínimo na vida familiar (e.g., Gerhardt et al., 2003; McClellan & Cohen, 2007; Rodrigues & Patterson, 2007), com algumas exceções (Moreira, Frontini, Bullinger, & Canavarró, 2013; Pai et al., 2007). No caso específico das famílias com filhos com epilepsia pediátrica, certos estudos encontraram níveis inferiores de funcionamento familiar adaptativo nas famílias com epilepsia, comparativamente a famílias com asma ou da população geral (Chiou & Hsieh, 2008; Curt LaFrance et al., 2011). Outros reportaram níveis de funcionamento familiar semelhante ou

superiores em certos domínios específicos nas famílias com filhos com epilepsia (Goldbeck, 2006; Herzer et al., 2010; Thornton et al., 2008).

Uma dimensão central do funcionamento familiar é a coesão familiar (Holmbeck et al., 2002). O termo coesão familiar refere-se à qualidade dos laços afetivos entre membros da família, caracterizados por um sentido de envolvimento, compromisso, proximidade e ligação entre si (Moos & Moos, 1986; Olson, Russell, & Sprenkle, 1983). As famílias coesas são geralmente descritas como evidenciando interações apoiantes ao nível dos múltiplos subsistemas familiares (Barber & Buehler, 1996; Olson et al., 1983). Ambientes familiares estáveis, seguros e coesos possibilitam o apoio mútuo e a partilha de emoções entre os seus membros, e contribuem para a contenção de respostas emocionais negativas à condição de saúde e ao tratamento (Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2007; Speechley et al., 2012). No presente, regista-se uma escassez de estudos que analisem o papel específico da coesão familiar na adaptação de crianças com epilepsia e seus pais.

4.2.1.1.2 Rituais familiares

No estudo das relações entre variáveis familiares e a saúde e a doença, os rituais familiares são passíveis de assumir um lugar de destaque, uma vez que viabilizam o foco no todo familiar, permitindo aceder aos significados da família como unidade coletiva e realçando a interseção entre os fatores individuais e familiares (Crespo et al., 2013; Denham, 2003; Fiese et al., 2002).

Os rituais familiares são atos simbólicos desenvolvidos e partilhados pelos vários membros da família, e que assumem um significado afetivo especial (Fiese & Kline, 1993; Fiese & Parke, 2002). De acordo com Wolin e Bennett (1984), existem três tipos de rituais que acontecem naturalmente nas famílias: as celebrações familiares, as tradições e as interações familiares padrão. As celebrações familiares integram quer os eventos estruturados e únicos que marcam importantes transições no tempo do ciclo de vida familiar (casamentos, funerais), quer as celebrações anuais que assinalam a passagem do calendário (feriados religiosos como o Natal). As tradições familiares são mais específicas para cada família (por exemplo, reuniões e encontros familiares anuais, comemoração dos aniversários, férias), repetindo-se ao longo dos anos. Por último, as interações familiares padrão, como a hora de jantar, hora de deitar, atividades do fim de semana, inscrevem-se de forma regular e informal no tempo quotidiano das famílias. Os rituais familiares podem ser considerados um barómetro da afetividade e organização familiares (Fiese, Hooker, Kotary, & Schwagler, 1993; Fiese & Sameroff, 1989). Como refere Crespo (2011), a criação de rituais significativos é uma das formas que as famílias têm de se organizar, adaptar e equilibrar as múltiplas exigências a que estão sujeitas, proporcionando estrutura, previsibilidade e estabilidade. Em simultâneo, os rituais familiares proporcionam a todos os seus membros um sentido de pertença e segurança partilhados, nas suas vidas diárias coletivas, facilitando a

comunicação e as ligações familiares positivas (Fiese, Foley, & Spagnola, 2006; Fiese et al., 2002), refletindo o sentimento de como os membros da família se sentem acerca de estarem junto em determinados eventos familiares (Fiese & Wamboldt, 2000; Spagnola & Fiese, 2007). Para além disso, os rituais familiares reforçam a identidade familiar, transmitem valores, objetivos e atitudes (Imber-Black & Roberts, 1998; Wolin & Bennett, 1984).

Os rituais familiares são recursos vitais da família na promoção da saúde e bem-estar, particularmente em alturas de transição ou adversidade, como quando uma família se vê confrontada com condição crónica de saúde pediátrica (Fiese & Wamboldt, 2000; Markson & Fiese, 2000; Spagnola & Fiese, 2007). Neste âmbito, Crespo e colegas (2013) destacaram três grandes funções dos rituais familiares no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas: (1) proporcionarem recursos estratégicos na gestão diária das CCSP; (2) criarem oportunidades de apoio e suporte emocional entre membros da família; (3) proporcionarem à família um sentimento de continuidade e de normalidade, prevenindo um foco exclusivo na condição de saúde da criança, seja com a realização das rotinas habituais, seja com a criação de novos rituais ou transformação dos antigos.

Apesar dos rituais serem transversais à existência das famílias e parte integrante da vida das famílias, a forma como são vividos - com maior ou menor investimento afetivo vs. indiferença; o modo como são realizados, e a importância que lhes é atribuída, variam de família para família (Crespo, Kielikowski, Pryor, & Jose, 2011; Spagnola & Fiese, 2007). Há famílias que os vivenciam de uma forma mais investida, outras de um modo mais indiferente (Dickstein, 2002; Wolin & Bennett, 1984). A repetição instrumental destes padrões de interação familiar, desligados de um significado emocional/simbólico, pode inviabilizar os benefícios atribuídos aos rituais para a saúde mental e bem-estar dos membros da família (Fiese et al., 2006; Serpell, Sonnenschein, & Baker, 2002).

Um número crescente de estudos tem dado apoio ao potencial de recurso que o significado atribuído aos rituais familiares pode ter ao nível dos resultados de adaptação individual dos membros da família e de funcionamento familiar no seu todo, no contexto de uma CCSP, designadamente QdV e/ou sintomas depressivos e ansiosos de pais e de crianças com cancro pediátrico (S. Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2015); na asma pediátrica (Markson & Fiese, 2000; S. Santos, Crespo, Silva, & Canavarro, 2012), assim como com níveis mais elevados de coesão familiar (Crespo, Kielikowski, et al., 2011; Fiese et al., 2002; Spagnola & Fiese, 2007). Do nosso conhecimento atual, o papel do significado atribuído aos rituais familiares nos processos e resultados de adaptação em famílias com filhos com epilepsia pediátrica permanece por explorar.

4.2.1.2 *Funcionamento familiar global no contexto das CCSP*

4.2.1.2.1 *Gestão familiar da CCSP*

Nas últimas décadas, os avanços verificados ao nível dos cuidados médicos pediátricos traduziram-se no desenvolvimento e disponibilização de modalidades de tratamento mais eficazes na redução e controlo dos sintomas clínicos, bem como na prevenção de complicações a longo-prazo das CCSP, que têm conduzido à redução do número de idas urgentes aos serviços de saúde, e contribuído para a melhoria da QdV dos doentes pediátricos, em geral (Modi et al., 2012). Este novo panorama de cuidados de saúde teve como contrapartida uma maior responsabilização das famílias pela gestão diária da CCSP dos seus filhos, assumindo a capacidade desta para gerir e monitorizar os estados de saúde da criança, os tratamentos diários, bem como protagonizar tomadas de decisão em relação à adoção (ou não) de medidas de apoio suplementares (Crespo, Santos, Tavares, & Salvador, 2016). A família, designadamente os pais, são encarados como elementos críticos na equipa de cuidados de saúde (Kratz, Uding, Trahms, Villareale, & Kieckhefer, 2009; Modi et al., 2012).

Por gestão familiar de uma CCSP entendem-se os esforços que os membros da família fazem para incorporar as exigências do tratamento e as necessidades especiais dos seus filhos no quotidiano familiar (Knafl et al., 2013). Apesar das especificidades relacionadas com a natureza dos sintomas, complexidade dos tratamentos ou extensão das restrições de atividades variar em função da CCSP e da situação clínica do doente (Rolland, 1994), transversalmente, a gestão familiar das CCSP pode incluir tarefas tão distintas como monitorizar a toma diária da medicação dos filhos; assegurar a presença nas consultas médicas; supervisionar níveis ou restrições de atividade; proporcionar informação rigorosa à equipa médica; realização de dietas específica; tomada de decisões médicas em momentos críticos; preencher e manter atualizados registos de sintomas ou dos efeitos secundários da medicação; promover a adesão a estilos de vida saudáveis, incluindo uma boa higiene do sono, boa gestão do stress ou evitamento de estímulos passíveis de desencadear sintomas (Dilorio et al., 2009; Fiese, Winter, Anbar, Howell, & Poltrock, 2008; Modi et al., 2012).

Para a família, cumprir com os múltiplos componentes dos regimes terapêuticos, cujas exigências são por vezes extensas, complexas e morosas, e incorporá-los na vida diária da família, ao longo do tempo, é gerador de desafios e preocupações adicionais (Cohen, 1999; Rolland, 1994). A entrada na família deste “convidado indesejado” que é a CCSP (Kazak, comunicação pessoal, 17 de outubro de 2013), obriga a novas tarefas, alterações nas prioridades e rotinas familiares, provoca aumento de pressão no exercício dos papéis de pai/mãe e nos restantes papéis familiares (Fiese, Winter, et al., 2008; Patterson, 1993). Os membros da família têm de aprender a comunicar e a trabalhar em equipa em torno da CCSP, no sentido de cumprirem com as exigências do tratamento e na realização de tomadas de decisão relativas aos cuidados

de saúde dos seus filhos (Knafl et al., 2013). Aos pais é esperado que dominem as múltiplas exigências do regime terapêutico e que equilibrem estas exigências com outras necessidades pessoais e familiares (Knafl et al., 2013; Knafl & Gilliss, 2002). À criança com CCSP é esperado que coopere com o tratamento prescrito, e que aceite possíveis alterações no seu padrão habitual de atividades. Aos irmãos é esperado que se ajustem às alterações nas rotinas familiares habituais e que eventualmente assumam novas responsabilidades (Cohen, 1999). Uma efetiva gestão da CCSP é condição crucial na maximização da eficácia dos tratamentos, evitando situações de utilização excessiva dos serviços de saúde (Modi et al., 2012). E se num primeiro momento, os pais desempenham um papel central na administração e monitorização dos efeitos do tratamento e no apoio emocional dos filhos, à medida que a criança vai crescendo, será desejável que se registre uma progressiva transferência de responsabilidades para o/a adolescente, que passa a ser o protagonista do processo de gestão diária da sua situação de saúde.

As famílias apresentam padrões distintos de resposta familiar aos desafios impostos pela condição de saúde dos seus filhos⁷ (Deatrick, Alderfer, Knafl, & Knafl, 2006; Knafl et al., 2013). A qualidade da resposta familiar à CCSP constitui um importante preditor do nível de adaptação das crianças e respetivos pais, transversalmente às várias CCSP (Fiese, Winter, et al., 2008; Knafl et al., 2013; Wallander & Varni, 1998). O sistema familiar pode interagir com as exigências da condição de saúde por forma a promover resultados positivos de adaptação (Cohen, 1999) ou, ao invés, as dinâmicas familiares podem afetar a expressão sintomática da CCSP, o uso dos serviços de saúde ou vice-versa (Barakat & Alderfer, 2011).

Assegurar a gestão bem-sucedida das CCSP no contexto da vida familiar quotidiana, já de si implicada no cumprimento das tarefas desenvolvimentais normativas da infância ou adolescência, é passível de representar sobrecarga a vários níveis (e.g., prático, emocional) e gerar dificuldades na vida familiar. A maior ou menor centralidade que as dificuldades assumem na vida familiar acarreta implicações nas possibilidades de adaptação dos filhos com CCSP e respetivos pais cuidadores (Deatrick et al., 2006). Para a maioria das famílias confrontadas com CCSP, após um período de ajustamento inicial na fase de diagnóstico, os tratamentos passam a fazer parte integrante das rotinas diárias da família, e os esforços a ser dirigidos na minimização

⁷ Na literatura encontramos diferentes tipologias de resposta familiar aos desafios impostos pela condição de saúde pediátrica. Nos trabalhos pioneiros de Davis (1963), este propõe dois tipos de família, fundada na dimensão normalização – dissociação. Em 2013, Knafl e colegas avançam com quatro padrões distintos de gestão familiar das CCSP, que se refletem num contínuo que vai da gestão familiar focada nas rotinas e atividades atuais da família (padrão focado na família) vs. gestão familiar focada nas exigências associadas à CCSP (padrão focado na condição). No padrão focado na família, os pais apesar de reconhecerem o esforço da gestão das CCSP, minimizam as dificuldades associadas com a CCSP, bem como o impacto da CCSP na vida quotidiana do seu filho e na família em geral. Em contrapartida, no padrão focado na condição, patente numa minoria das famílias (8%), os pais percebem a vida dos seus filhos como muito diferente da dos respetivos pares, revelando que a gestão da CCSP constitui o foco da vida familiar, reportando como difíceis as tarefas e responsabilidades que lhe estão associadas, e às quais se sentem frequentemente incapazes de dar resposta apropriada. Entre estes dois padrões surgem os padrões “moderadamente centrado na família” e o padrão “moderadamente centrado na condição”, sendo que este último padrão foi identificado em cerca de um terço das famílias da amostra.

do impacto da condição, conseguindo-se níveis elevados de adaptação (Deatrick, Knafl, & Murphy-Moore, 1999; Knafl & Gilliss, 2002). Este processo de normalização progressiva envolve o desenvolvimento de estratégias da parte dos pais, que garantam a adesão ao tratamento, e ao mesmo tempo, a preservação de atividades familiares e da criança, prevenindo que a doença se converta no epicentro da vida familiar⁸ (Gonzalez, Steinglass, & Reiss, 1989; Knafl & Deatrick, 2002). As famílias capazes de dar respostas adequadas às exigências da condição de saúde sem sacrificarem as necessidades dos seus membros individuais e da família como um todo, “ensuring that the illness is kept at its place” (Steinglass & Horan, 1988, p. 140), evidenciaram resultados superiores de adaptação dos seus membros individuais, relativamente às famílias em que os esforços e preocupações na gestão diária da CCSP se convertiam no epicentro da vida familiar (Knafl et al., 2013; McQuaid, Walders, Kopel, Fritz, & Klinnert, 2005).

As dificuldades na gestão familiar das CCSP foram associadas a sentimentos parentais de elevada sobrecarga e stress parental (Cohen, 1999; Fiese, Winter, et al., 2008). Um dos fatores passível de contribuir para as dificuldades na gestão familiar da CCSP é a não-adesão ao tratamento. Estudos anteriores revelaram elevadas taxas de não-adesão transversalmente às várias condições crónicas de saúde, designadamente na epilepsia, a rondar os 50% de casos, entre adolescentes (Drotar, 2000; Lemanek, Kamps, & Chung, 2001; Modi, Rausch, & Glauser, 2011). Tal significa que muitas CCSP são insuficientemente tratadas relativamente aos padrões recomendados de cuidados de saúde (Barros, 2003). A avaliação materna das dificuldades no quotidiano familiar, aliada à perceção de escassez de recursos intra-familiares de suporte, foi considerado um dos preditores mais significativos dos níveis de perturbação emocional experienciados pela família, acima e além da severidade clínica da CCSP (Shore et al., 2002; Streisand, Swift, Wickmark, Chen, & Holmes, 2005).

O modo como os pais percebem o impacto da CCSP na vida diária dos seus filhos, e o modo como percecionam a vida diária dos seus filhos comparativamente aos pares da sua idade, constitui uma dimensão integrante da gestão familiar da CCSP (Knafl et al., 2013). Num dos lados do *continuum*, situam-se os pais para quem o impacto da CCSP na vida quotidiana do seu filho e da família assume uma centralidade exclusiva; como se todo o comportamento e desenvolvimento da criança fosse hiperdeterminado pela CCSP (Barros, 2003). Do outro lado do *continuum* situam-se os pais que perspetivam o seu filho como uma criança mais semelhante (do que diferente) aos pares da sua idade, com as quais partilha necessidades e aspirações típicas da sua fase de desenvolvimento; e consideram que só em períodos e situações muito específicas é que a CCSP adquirirá centralidade na vida do seu filho (Barros, 2003; Knafl et al., 2011). A

⁸ Importa reconhecer que, em algumas famílias, a normalização pode ser equacionada como não desejável, dada a gravidade da condição clínica da criança (Knafl & Deatrick, 2002). Nesses casos, o grande desafio passa pela criação de um novo sentido de normalidade, mais do que um retorno aos padrões de funcionamento familiar prévios à instalação da CCSP (Carpenter & Narsavage, 2004).

capacidade das famílias para reconhecerem a realidade da situação de saúde dos filhos, e ao mesmo tempo adotarem as lentes da normalidade na forma como encaram a criança e a família, constitui um facilitador à manutenção de um estilo de vida familiar não centrado nas vulnerabilidades da criança ou na sobrecarga dos cuidados (Knafl & Deatrick, 2002), influenciando de modo positivo as oportunidades de desenvolvimento proporcionadas à criança. Estudos anteriores revelaram associações significativas entre perceções parentais positivas em torno da vida diária das crianças e os indicadores de adaptação das mesmas (Knafl et al., 2013; Salvador, Crespo, Martins, Santos, & Canavarro, 2015).

No caso específico das famílias em que as funções parentais são partilhadas, os pais constituem uma fonte primária de apoio mútuo, tanto a nível prático, como emocional. Ainda que as mães tendam a assumir o protagonismo da prestação de cuidados de saúde à criança (Raina et al., 2004), a capacidade dos dois elementos do subsistema parental para funcionarem como uma equipa colaborativa, é perspetivada como uma das variáveis mais relevantes na qualidade da gestão familiar à CCSP e na adaptação bem-sucedida dos membros da família (Rolland & Walsh, 2006; Wysocki & Gavin, 2006). Esta característica do funcionamento familiar, também designado de mutualidade parental, pode ter lugar a vários níveis, nomeadamente nas tomadas de decisão em torno da procura e escolha de serviços, adesão aos procedimentos de diagnóstico e tratamento, mudanças de estilos de vida na família, definição de papéis e responsabilidades em relação ao tratamento, e na partilha de cuidados à criança. A investigação sugere uma grande variabilidade entre famílias ao nível do grau de envolvimento do pai/parceiro da mãe na gestão familiar da CCSP da criança (Cohen, 1999; Wysocki & Gavin, 2006). Investigações na área da diabetes pediátrica sugerem que a quantidade e qualidade do envolvimento parental pode afetar direta e indiretamente, processos como a monitorização da adesão da criança ao tratamento, a frequência de reforços positivos quando a criança apresenta comportamentos de auto-gestão da CCSP adequados, o nível de aquisição de informação relevante acerca da doença e tratamentos ou a facilitação do ajustamento e sucesso escolar da criança (Gavin & Wysocki, 2006).

4.2.1.3 *Nível socioeconómico da família*

Os dados de investigações prévias na epilepsia pediátrica são consistentes ao afirmarem que agregados familiares de NSE mais baixo apresentam um risco acrescido para a experiência de níveis inferiores de QdV nos seus membros individuais (Austin, Dunn, Johnson, & Perkins, 2004; Shore et al., 2002; Spencer, Blackburn, & Read, 2015). Numa meta-análise recente, o NSE foi identificado como um dos preditores mais significativos da QdVRS das crianças e adolescentes com epilepsia (Ferro, 2014). As dificuldades económicas podem resultar em restrições no acesso a cuidados de saúde de qualidade, medicação, cumprimento do plano de assistência terapêutica, mesmo em países com acesso tendencialmente gratuito e universal aos serviços de saúde (C.

Camfield, Camfield, & Smith, 2016; Rodenburg et al., 2007). Estudos longitudinais de base populacional realizados no Canadá, e com mais de duas décadas de evolução, examinaram a influência do NSE das famílias no curso clínico da epilepsia e nos indicadores de ajustamento social das crianças. Os resultados evidenciaram que as crianças provenientes de agregados de NSE inferior apresentavam resultados mais adversos de adaptação, designadamente fracasso a nível académico, maiores taxas de desemprego, maior morbilidade psiquiátrica, maior número de gravidezes indesejadas, nível de rendimentos inferior (C. Camfield et al., 2016). Resultados semelhantes foram apresentados por Geerts e colegas (2010), no âmbito de um estudo longitudinal de 15 anos na Holanda. Ou seja, apesar de não afetar diretamente a evolução clínica da situação de saúde, o NSE do agregado de origem acaba por ser um fator de risco para a adaptação social a longo-prazo.

4.2.2 Subsistema parental

4.2.2.1 Competência parental

A competência parental é considerada um dos determinantes mais significativos das práticas parentais efetivas e tem sido consistentemente associada a indicadores positivos de desenvolvimento e adaptação na criança (Coleman & Karraker, 2000; T. L. Jones & Prinz, 2005). De acordo com Johnston e Mash (1989), a competência parental integra duas dimensões distintas mas interrelacionadas: satisfação parental (dimensão afetiva) e a eficácia (dimensão instrumental).

A satisfação parental pode ser definida como a qualidade do afeto associado à parentalidade (Johnston & Mash, 1989). A satisfação parental coloca o foco na importância, investimento e interesse que os indivíduos colocam no seu papel de pais. Ser pai ou mãe de uma criança em geral, pela diversidade de desafios que coloca, pode ser potencialmente satisfatório ou recompensador, gerador de sentimentos de gratificação e realização pessoal, mas também pode suscitar sentimentos de exaustão, tensão emocional e experiência de elevados níveis de stress (Coleman & Karraker, 2000). Estudos empíricos nas áreas da parentalidade e CCSP mostraram que as mães de crianças com diabetes ou alergias alimentares evidenciavam níveis superiores de frustração no seu papel de mães, bem como maior propensão para atribuírem os problemas de comportamento dos filhos à sua incompetência enquanto mães, comparativamente às mães de crianças saudáveis (Aviram, Atzaba-Poria, Pike, Meiri, & Yerushalmi, 2015; Rodrigue, Geffken, Clark, Hunt, & Fishel, 1994).

Uma segunda dimensão na qual a competência parental se operacionaliza é a eficácia parental, um construto fundado na teoria da cognição social de Bandura (1995). A eficácia parental pode ser definida, de uma forma lata, como crenças e expectativas que os pais sustentam relativamente à sua capacidade para influenciarem de modo positivo o comportamento e o curso do desenvolvimento dos seus filhos (Coleman & Karraker, 1998; Johnston & Mash, 1989; T. L.

Jones & Prinz, 2005). Pais com elevadas crenças de eficácia acreditam na sua capacidade para proporcionarem o apoio emocional, social e cultural aos filhos, de modo a que estes sejam bem-sucedidos nas tarefas de desenvolvimento em curso. A eficácia parental constitui um recurso importante para os pais lidarem com circunstâncias desafiantes e tem sido associada a indicadores positivos de adaptação das crianças (Coleman & Karraker, 2000; Gilmore & Cuskelly, 2009). Pais com níveis de eficácia parental superiores tendem a adotar um estilo parental apoiante e a fazer uso pouco frequente de comportamentos parentais controladores e inconsistentes (Dumka, Gonzales, Wheeler, & Millsap, 2010). Níveis inferiores de eficácia parental têm sido associados a problemas de comportamento na criança e a perceções parentais do seu filho como tendo um temperamento difícil (Austin, Dunn, et al., 2004; Coleman & Karraker, 2000; Roskam, Meunier, & Stievenart, 2016).

O estudo das associações entre eficácia parental e características do ambiente familiar e do contexto social mais vasto onde a família se insere, tem recebido atenção crescente da parte da investigação (T. L. Jones & Prinz, 2005). A eficácia parental tem sido associada a perceção de níveis superiores de satisfação conjugal, designadamente de apoio e encorajamento do companheiro, de dimensões positivas do funcionamento familiar, características positivas da rede de suporte social (e.g., tamanho, tipo de apoio), e situação financeira familiar mais favorável (Coleman & Karraker, 1998; Sevigny & Loutzenhiser, 2010). A eficácia parental é considerada uma variável mediadora das associações entre temperamento difícil da criança, e indicadores de ajustamento psicológico das mães, designadamente depressão materna (P. R. Benson, 2016; Cutrona & Troutman, 1986).

Ser mãe ou pai de uma criança com epilepsia suscita um conjunto de desafios e interrogações adicionais na área da parentalidade e das relações pais-filhos. Entre estes, destacam-se o ter de lidar com a imprevisibilidade e incerteza em torno das manifestações sintomáticas e das consequências da epilepsia (e do tratamento) na vida dos filhos; o eventual impacto negativo das crises e da medicação em dimensões do desenvolvimento e comportamento da criança (e.g., linguagem, coordenação motora, comportamento, autoestima, capacidade intelectual) (Aytch, Hammond, & White, 2001; Buelow, McNelis, Shore, & Austin, 2006); a possibilidade do filho ser alvo de discriminação e estigma (MacLeod & Austin, 2003; Wagner, Sample, et al., 2009); o receio do filho falecer ou de sofrer danos físicos graves no decurso de uma crise epilética (Aytch et al., 2001; Shore et al., 2009); dificuldades de realização escolar (Buelow et al., 2006; Wagner, Sample, et al., 2009); ou o impacto da condição de saúde nas relações familiares (Aytch et al., 2001; Buelow et al., 2006; Shore, Perkins, & Austin, 2008). Neste sentido, a presença da epilepsia pode ser perturbadora da função parental, designadamente na equação do equilíbrio entre as necessidades normativas de autonomia crescente dos filhos, com a necessidade específica de proporcionar apoio emocional e proteção

acrescidos (McNelis et al., 2007; Rodenburg et al., 2013b). Tal poderá refletir-se ao nível de alterações nas práticas e atitudes educativas, seja no sentido da sobreproteção, com maior vigilância e imposição de restrições que impedem a criança de participar na maior parte das atividades recreativas e sociais próprias para a sua idade (Modi, 2009; Painter et al., 2014), seja na adoção de atitudes mais permissivas e desculpabilizantes relativamente a comportamentos inadequados dos filhos, com receio que o stress motive uma nova crise (Rodenburg et al., 2013b; M. C. Santos, 2010) e comprometendo desta forma o cumprimento das tarefas desenvolvimentais em curso (Barros, 2003). Numa meta-análise onde comparou práticas parentais e qualidade da relação pais filhos em diferentes condições crónicas de saúde pediátricas, Piquart (2013) concluiu que as famílias com filhos com epilepsia se encontravam em risco acrescido para práticas parentais desajustadas. Em face das relações amplamente estudadas entre práticas parentais e crenças de autoeficácia, estes resultados sugerem um risco acrescido dos pais com crianças com epilepsia para apresentarem níveis inferiores de competência parental. Num dos poucos estudos a abordar as questões da parentalidade na epilepsia, Austin e colegas (2004) reportaram que um dos preditores significativos para a ocorrência de problemas de comportamento na criança eram os níveis inferiores de confiança parental, a par de um ambiente familiar menos organizado e previsível.

4.2.3 Indivíduos

4.2.3.1 Crianças

4.2.3.1.1 Perceção de estigma

O estigma é um conceito complexo de investigar uma vez que envolve atitudes e crenças pessoais, elementos de secretismo e gestão de revelação do diagnóstico no espaço interpessoal, bem como de influências do meio social (Austin, MacLeod, Dunn, Shen, & Perkins, 2004). Neste contexto, Scambler e Hopkins (1986) deram um contributo pioneiro ao alertarem para a necessidade de distinção entre perceção de estigma (*felt or perceived stigma*, do original inglês) e o sentir-se estigmatizado (*enacted stigma*, do original inglês) (Scambler, 2004; Scambler & Hopkins, 1986). Esta distinção assume particular relevância em condições de saúde como a epilepsia. Sentir-se estigmatizado implica o confronto com episódios reais de discriminação, tanto formal como informal, motivada pelo facto de ter epilepsia. Em contrapartida, a perceção de estigma refere-se à vergonha de sofrer de epilepsia e ao receio de ser alvo de discriminação, gozo ou intimidação no caso de ter uma crise na presença de outras pessoas (Austin, MacLeod, et al., 2004; Austin, Perkins, & Dunn, 2014; Jacoby & Austin, 2007). Contrariamente a outras doenças, a epilepsia só é uma condição abertamente visível quando os sintomas se manifestam fisicamente (i.e., durante uma crise epilética) ou quando são levantadas pistas num contexto público sobre condição de saúde (i.e., quando a pessoa toma a medicação); mantendo-se invisível

a maior parte do tempo. Alguns doentes e familiares evitam recorrer ou rejeitam mesmo a utilização do termo “epilepsia” (Jacoby et al., 2005). A perceção de estigma pode torna-se numa profecia que se autocumprir, uma vez que o medo e a vergonha de ter epilepsia podem conduzir à adoção de comportamentos de isolamento e secretismo, que em si mesmos negam a oportunidade das pessoas testarem a materialização (ou não) dos episódios de discriminação antecipados (Scambler & Hopkins, 1990). Importa ainda acrescentar que enquanto as crises parciais são passíveis de serem escondidas e/ou (re)enquadradas, as crises generalizadas são mais difíceis de esconder e podem tornar-se mais salientes aos olhos dos outros (Jacoby et al., 2005).

Estudos com adolescentes com epilepsia têm revelado que o facto da maior parte deles não se considerar alvo de estigma não pode ser desligado da circunstância desses mesmos adolescentes evitarem revelar aos outros que têm epilepsia ou falarem sobre a doença, com medo de serem vistos como diferentes, objeto de gozo e/ou vítimas de isolamento social (Austin et al., 2014; Jacoby & Austin, 2007). Num estudo desenvolvido por Baker e colegas (2008), 36% dos adolescentes com epilepsia assumiram que tinham mantido em segredo o seu diagnóstico, uma vez que não queriam ser tratados de modo diferente, quer por colegas, quer por professores. Vinte e três por cento dos pais destes adolescentes também decidiram manter o diagnóstico secreto. Para os que sofrem de níveis significativos de estigma, este constitui um fardo significativo, sendo passível de produzir impacto a vários níveis, designadamente na saúde psicológica, QdV e bem-estar (Jacoby, 2002; Y. Wu et al., 2014). Crianças e adolescentes com epilepsia que reportam níveis mais elevados de estigma evidenciam maior propensão para problemas de autoestima, sintomas ansiosos e/ou depressivos (Austin, MacLeod, et al., 2004; Westbrook, Bauman, & Shinnar, 1992). Este tipo de estigma internalizado pode afetar negativamente a QdV, mesmo no caso das crises epiléticas estarem bem controladas com a medicação (Westbrook et al., 1992).

Vários estudos têm procurado analisar se o grau de estigma percebido é influenciado por variáveis como a idade de início ou curso da doença, a frequência e tipo das crises, os efeitos secundários da medicação, entre outros fatores (e.g., Austin et al., 2014; Jacoby et al., 2005). Os resultados relativamente às associações entre variáveis clínicas e níveis de estigma percebido não são conclusivos, e as associações reportadas são geralmente baixas. Apesar de vários estudos sugerirem uma associação significativa entre níveis de estigma sentido, maior frequência de crises, mais tempo de evolução de doença, ou com certo tipo de crises (tónico-clónicas) (Austin et al., 2015; Baker et al., 2000; A. Benson et al., 2016); há outros estudos que reportam o facto de crianças ou adolescentes com crises controladas (Cianchetti et al., 2015; Rood, Schultz, Rausch, & Modi, 2014b) ou com outro tipo de crises que não as tónico-clónicas (Westbrook et al., 1992), também apresentarem níveis elevados de estigma percebido. Este conjunto de resultados alerta-nos para a possível influência de variáveis do contexto social e

cultural de inserção do doente, nos mecanismos através dos quais os fatores clínicos influenciam a perceção de estigma dos doentes (Jacoby et al., 2005).

4.2.3.1.2 *Grupo etário*

No âmbito da investigação na epilepsia pediátrica, as crianças e adolescentes são muitas vezes combinados num mesmo único grupo etário (e.g., Rodenburg et al., 2007). No entanto, a infância e a adolescência são etapas distintas do ciclo de vida individual que impõem questões maturacionais e tarefas desenvolvimentais diferentes a que importa atender na altura de avaliar os resultados de adaptação. No decurso de desenvolvimento individual ocorrem mudanças significativas ao nível de competências sociocognitivas, que influenciam o modo como a criança ou o adolescente será capaz de compreender e lidar com a epilepsia (Thompson & Gustafson, 1996). Para além disso, as tarefas de desenvolvimento em marcha na adolescência tais como a negociação da autonomia, definição da identidade e relação com os pares (Erikson, 1980), podem tornar este período particularmente sensível para piores resultados de adaptação. O tratamento da epilepsia e a prevenção de novas crises implica, da parte do adolescente, a adoção de determinados comportamentos que poderão obrigar à negociação ou adiamento das aquisições típicas desta fase da vida, como por exemplo, saídas noturnas, aprender a conduzir, consumos de álcool, entre outros.

Num estudo comparativo português com crianças e com adolescentes com condições crónicas de saúde várias e respetivos pais, Moreira e colegas (2013) encontraram níveis significativamente inferiores de QdVRS no grupo de adolescentes e seus pais, em relação ao registado no grupo de crianças e seus pais. Também Heimlich e colegas (2000), num estudo com adolescentes dos 11 aos 17, verificaram serem os adolescentes mais velhos, os que expressavam atitudes mais negativas em relação à sua epilepsia, possivelmente associado à sensibilidade acrescida dos mais velhos para com o facto de sofrerem de uma condição de saúde estigmatizante. No entanto, outros estudos reportaram que o grupo etário das crianças apresentava valores significativamente mais elevados de problemas de comportamento e emocionais (Austin, Dunn, Perkins, & Shen, 2006; Austin et al., 2014).

4.2.3.2 *Pais*

4.2.3.2.1 *Perceção de estigma*

Para as famílias com uma criança com epilepsia, lidar com a natureza estigmatizante desta condição de saúde torna-se um importante assunto de família, podendo causar maior sobrecarga do que as manifestações físicas das crises *per se* (A. Benson et al., 2015; McNelis et al., 2007). A perceção de estigma pelos pais refere-se às perceções dos pais relativamente à possibilidade do

seu filho estar a ser, ou poder vir a ser, no futuro, alvo de estigma pelas outras pessoas ou pela sociedade em geral, pela circunstância de ter epilepsia⁹ (Austin, MacLeod, et al., 2004).

Os pais constituem figuras-chave na forma como a epilepsia é gerida na família e no modo como a criança compreende e lida com a sua “diferença indesejada” (Lambert et al., 2014, p.25). Estudos prévios revelaram que uma percentagem significativa dos pais sustentava atitudes negativas e uma elevada apreensão relativamente ao impacto que a epilepsia pudesse vir a ter na vida dos filhos, mesmo quando não justificada pela baixa gravidade da condição de saúde (Cianchetti et al., 2015). Escassez de informação e limitações nos conhecimentos acerca da natureza e consequências da epilepsia levam frequentemente os pais a antecipar atitudes e reações negativas dos outros (Jacoby et al., 2005). A crença amplamente enraizada de que a epilepsia é uma doença *má*, que levará à discriminação social, é algo difícil de rebater, mesmo na perspetiva de um bom prognóstico (Cianchetti et al., 2015). De particular relevância parece ser a forma como os pais comunicam de forma verbal e não-verbal acerca de epilepsia, seja dentro ou fora da família (Lambert et al., 2014; O'Toole et al., 2015). O facto da epilepsia apenas se tornar abertamente visível durante as crises, leva muitos pais a limitar a revelação do diagnóstico, ou mesmo a manter o diagnóstico de epilepsia secreto, ao mesmo tempo que restringem a participação da criança em eventos sociais, reajustando os tempos livres passados em família, do exterior para o interior do espaço familiar (Lambert et al., 2014; Painter et al., 2014). O medo do estigma que rodeia a epilepsia pode igualmente levar os pais a não discutir o assunto em família, com os filhos, desta forma agindo como “stigma coaches” (Lambert et al., 2014, p. 25), transmitindo-lhes a mensagem de que a epilepsia é algo sobre a qual não devem falar com os outros (A. Benson et al., 2015). Este conjunto de iniciativas, mais ou menos conscientes da parte dos pais, constituem formas de prevenir uma rejeição antecipada ou/e embaraço e vergonha (Perlick et al., 2007), mas têm como contrapartida um previsível impacto negativo tanto na QdV das crianças, como dos seus pais. Estudos sugerem serem os pais com atitudes mais negativas em relação à doença, os que evidenciam maior propensão para comportamentos de superproteção, permissividade ou rejeição, fundados na crença de que a oposição parental poderá ser precipitante de crise, e com decréscimo generalizado de expectativas em relação aos filhos (Carlton-Ford, Miller, Nealeigh, & Sanchez, 1997; Rodenburg et al., 2011). Nas relações da família com o exterior, o estigma social pode ainda funcionar como barreira na procura e uso de serviços educativos, médicos e sociais, como forma de evitar a exposição da família; ou devido

⁹ Importa distinguir o conceito de *perceção de estigma* pelos pais, de outro próximo, o de *estigma de cortesia* (*courtesy stigma*, do original inglês), que se refere ao grau em que os pais, enquanto familiares, pela circunstância do seu filho ter epilepsia, se sentem estigmatizados pelos outros ou pela sociedade em geral. Estudos prévios com prestadores de cuidados a doentes com outras condições crónicas de saúde estigmatizantes passíveis de serem mantidas secretas (e.g., perturbações psiquiátricas, doença de Alzheimer, HIV) revelaram que uma percentagem substancial destes cuidadores se sente estigmatizado (H. Liu, Xu, Lin, Shi, & Chen, 2013; Perlick et al., 2007), sofre de problemas de saúde físicos e psicológicos, e que evita procurar possíveis ajudas como forma de prevenir uma rejeição antecipada, embaraço ou vergonha (Perlick et al., 2007).

à falta de informação relativamente aos benefícios dos serviços disponibilizados (MacLeod & Austin, 2003; Wagner, Sample, et al., 2009; Wodrich, Kaplan, & Deering, 2006). No presente, são ainda escassos os estudos que analisam as associações entre perceção de estigma dos pais e os respetivos níveis de adaptação, designadamente ao nível da sua QdV.

4.2.3.2.2 *Orientação para a comparação social*

As comparações sociais são consideradas uma fonte privilegiada de informação para o *self*, permitindo às pessoas avaliar as suas capacidades, bem como a precisão das suas opiniões, convicções e comportamentos (Gibbons & Buunk, 1999). As pessoas distinguem-se na propensão para se envolverem em comparações sociais, uma disposição de personalidade conhecida como orientação para a comparação social, que acarreta implicações para o seu bem-estar, ajustamento e adaptação (Dijkstra, Buunk, Tóth, & Jager, 2007; Gibbons & Buunk, 1999). As pessoas com uma elevada orientação para a comparação social estão particularmente interessadas comparar a sua própria situação, com a de outras pessoas (Buunk et al., 2012; Van der Zee, Oldersma, Buunk, & Bos, 1998), e são também aquelas em que as comparações sociais produzem maior impacto (Gibbons & Buunk, 1999). A tendência para a comparação social tende a ser exacerbada em períodos de incerteza ou de ansiedade mais elevada (Gibbons & Buunk, 1999). As comparações sociais podem ser utilizadas como fonte de auto-aperfeiçoamento, uma ajuda na identificação de respostas apropriadas para situações desafiantes, ou como uma forma de aumentar o bem-estar emocional (Bennenbroek, Buunk, van der Zee, & Grol, 2002).

Na perspetiva de uma figura parental, a presença de uma condição crónica de saúde como a epilepsia, representa uma fonte permanente de ameaça e incerteza relativamente ao estado de saúde atual e futuro do seu filho (Arigo, Suls, & Smyth, 2012; Pianta, Marvin, Britner, & Borowitz, 1996). Estudos na área da Psicologia da Saúde revelam que doentes adultos e as suas famílias, em situações de incerteza prolongada, stress agravado (por exemplo, em períodos de agudização da sintomatologia, alterações de medicação, proximidade de realização de procedimentos cirúrgicos), ou quando informação objetiva acerca do estado de saúde da pessoa escasseia, evidenciam uma necessidade acrescida de informação comparativa proveniente de outros que reconhecem como iguais a si próprios, ou que enfrentam situações de vida semelhantes (Affleck, Tennen, Pfeiffer, Fifield, & Rowe, 1987; Bennenbroek et al., 2002; Blanchard, Blalock, DeVellis, DeVellis, & Johnson, 1999).

Os pais de crianças com CCSP podem envolver-se de forma mais ou menos intencional em comparações sociais durante o tempo em que estão na sala de espera dos serviços de saúde, quando consultam sites na internet, quando folheiam materiais educativos ou quanto trocam impressões com outros pais (Blanchard et al., 1999). Procurar ou confrontar-se com informação comparativa de outros doentes e famílias permite aos pais avaliarem a sua própria situação (e a dos seus filhos), designadamente a gravidade da condição de saúde, a eficácia relativa do

tratamento em curso, o modo como estão a lidar com o tratamento e respetivos efeitos secundários, aferir prognósticos ou a eficácia das estratégias de *coping* adotadas, o que em última instância os pode ajudar a ganhar e manter maior controlo sobre a situação e melhorar o seu bem-estar (Buunk et al., 2012; Davison, Pennebaker, & Dickerson, 2000; Hodges & Dibb, 2010).

Os dados de investigação sobre o impacto dos processos de comparação social no bem-estar psicológico e adaptação individual, em geral, são inconsistentes (Arigo et al., 2012). Enquanto há comparações sociais que podem aumentar o bem-estar (por exemplo, quando alguém se compara com outrem numa situação mais difícil que a sua), um crescente número de evidências revela que as pessoas que espontaneamente realizam mais comparações sociais, são também as que experienciam emoções e comportamentos mais destrutivos (Lyubomirsky, Tucker, & Kasri, 2001; White, Langer, Yariv, & Welch, 2006). A tendência para procurar informação comparativa associa-se a níveis inferiores de autoestima, e níveis mais elevados de sintomas depressivos e neuroticismo (Gibbons & Buunk, 1999). Assim, ainda que algumas comparações se possam revelar inspiradoras para o futuro, outras podem tornar-se desgastantes e perturbadoras, especialmente se a pessoa considerar que a sua situação (e do seu filho) nunca será tão favorável, como a da família/criança que elegem como alvo de comparação (Blanchard et al., 1999; Hodges & Dibb, 2010), ou então quando temem, por via das comparações, que possam um dia a vir a estar tão mal como as pessoas com quem se estão a comparar (Bennenbroek et al., 2002; White et al., 2006).

Apesar da relevância dos processos de comparação social nos contextos de saúde e doença, o impacto da atividade de comparação social dos pais nos indicadores de adaptação dos pais ou dos filhos raramente foi examinado no contexto das condições crónicas de saúde pediátrica, designadamente na epilepsia. Uma das poucas exceções é o estudo conduzido por Hodges e Dibb (2010) com pais de crianças com distrofia muscular de Duchenne, uma doença neuromuscular progressiva fatal, que abordou estratégias utilizadas pelos pais no sentido de lidarem com informação social comparativa ameaçador, como sejam minimizar a frequência de contacto com pais de crianças com desenvolvimento normativo. Neste estudo, apesar de muitos pais revelarem prudência no sentido de não compararem os filhos deles com outras crianças, tais comparações acabam por ser uma consequência inevitável da visibilidade dos sintomas das crianças (Hodges & Dibb, 2010).

4.2.4 Fatores clínicos: Epilepsia e respetivo tratamento

A epilepsia e respetivo tratamento colocam elevadas exigências sobre a família e a criança, e constituem uma parte importante da vida das famílias afetadas, por um período de tempo prolongado e indeterminado. A seguir, iremos focar-nos em três dimensões clínicas específicas: gravidade, controlo clínico das crises e tempo desde o diagnóstico.

4.2.4.1 *Gravidade clínica*

Apesar da gravidade objetiva de uma condição crónica de saúde não estar, na generalidade das situações, diretamente ligada ao nível de adaptação individual, no caso das condições de saúde que afetam o sistema nervoso central, considera-se que a gravidade das mesmas tem um impacto maior sobre as possibilidades de adaptação individual dos pacientes (Rodrigues & Patterson, 2007; Wade et al., 2006; Wallander & Varni, 1998).

As últimas décadas registaram o desenvolvimento de várias medidas para avaliar a gravidade da epilepsia (Austin, Huster, Dunn, & Risinger, 1996; Carpay et al., 1996; Cramer, Baker, & Jacoby, 2002; Dunn, Buelow, Austin, Shinnar, & Perkins, 2004; Speechley et al., 2008; Wagner, Smith, Ferguson, & Wannamaker, 2009). Ainda assim, continua a não existir uma definição única e consensual desta variável clínica, nem acordo sobre as dimensões específicas a atender, e a respetiva ponderação na avaliação da gravidade global da epilepsia (Austin et al., 1998; Sabaz et al., 2000). Um indicador frequentemente utilizado na literatura para aferir a gravidade da epilepsia na área pediátrica é a gravidade das crises epiléticas. Algumas crises, como as tónico-clónicas são consideradas mais intrusivas que outras (e.g., crises de ausências), dada a sua visibilidade, tempo maior de recuperação no pós-crise e a intensidade de reação que o suscitam dos outros (Austin et al., 2006; Dreifuss & Nordli, 2001). Porém, alguns investigadores alertam para as insuficiências da consideração exclusiva do tipo de crises na avaliação da gravidade da condição clínica do doente, recomendando a consideração de dimensões clínicas adicionais, designadamente a frequência das crises, a ocorrência de quedas ou ferimentos no decurso de uma crise, o número total de fármacos antiepiléticos prescritos até ao momento para controlar as crises, interferência da epilepsia ou da medicação antiepilética na realização das atividades de vida diária (Austin, MacLeod, et al., 2004; Speechley et al., 2008).

Avaliar e monitorizar a gravidade da epilepsia revela-se importante para documentar os resultados das várias terapêuticas aplicadas no tratamento, bem como para prever o impacto psicossocial da doença (Dunn et al., 2004). Epilepsias mais severas, de difícil controlo, são passíveis de colocar exigências acrescidas em termos de supervisão parental, restrições de atividade, lidar com o estigma, aumentando o nível de stress vivido (Austin, Dunn, & Huster, 2000; Rodenburg et al., 2013b). Porém, as evidências empíricas disponíveis relativas às associações entre gravidade clínica da epilepsia e indicadores de adaptação psicossocial de crianças e seus pais não são totalmente conclusivas. Por um lado, temos os estudos que reportam associações significativas entre gravidade da epilepsia e níveis inferiores de QdVRS nas crianças (C. Camfield, Breau, & Camfield, 2001; Carlton-Ford et al., 1997; Heimlich et al., 2000; X. Liu & Han, 2015; Sabaz et al., 2000) e também nos seus pais (C. Reilly, Taft, Nelander, Malmgren, & Olsson, 2015). Numa meta-análise recente, a gravidade das crises, a par da ansiedade dos pais, foi mesmo considerada um dos preditores mais significativos da experiência

de níveis inferiores de QdVRS nas crianças (Ferro, 2014). Por outro lado, há estudos em que a associação entre a gravidade da epilepsia (ou das crises) e indicadores de adaptação psicossocial de crianças ou de pais não se verifica, ou quanto muito essas associações são modestas (e.g., Lach et al., 2006; Oostrom et al., 2005; Suurmeijer, Reuvekamp, & Aldenkamp, 2001). Avaliando o contributo simultâneo de variáveis clínicas e familiares no ajustamento psicossocial de crianças e adolescentes com epilepsia, Rodenburg e colegas (2006) concluíram que a associação direta entre gravidade da epilepsia e a intensidade de problemas do comportamento nas crianças é fraca, sendo o seu efeito predominantemente mediado por variáveis psicossociais, nomeadamente variáveis do foro familiar.

Quando comparamos medidas de gravidade de epilepsia avaliada por médicos e por pais, as mesmas revelam uma correlação fraca, dado que reflete o facto de médicos e cuidadores darem importância a dimensões diferentes da condição de saúde quando avaliam a respetiva gravidade (Carpay et al., 1997). A magnitude relativa das associações entre gravidade clínica reportada pelos pais ou pelo médico assistente, e a QdVRS das crianças, é maior nos pais (Wagner, Smith, et al., 2009), dado que nos alerta para a importância de atender às experiências subjetivas dos pais (e das crianças) no estudo dos processos de adaptação à condição clínica.

4.2.4.2 *Controlo clínico das crises*

As crises epiléticas constituem a face mais visível da epilepsia. Porém, a ocorrência de crises epiléticas, e o seu papel no nível de adaptação individual de crianças e pais tem-se revelado de baixa magnitude, carecendo de um enquadramento contextual maior (Austin & Caplan, 2007). Os estudos são consistentes ao revelarem o efeito deletério da frequência adicional das crises na QdV e no ajustamento psicossocial de crianças com epilepsia (Austin et al., 2015; Sabaz et al., 2003). Num estudo de *follow-up* de nove anos após o diagnóstico de epilepsia, Baca e colegas (2012) verificaram que a QdVRS é pior para aqueles que experienciam crises no último ano, comparativamente aqueles que estão livres de crises há um ou mais anos, não se registando diferenças significativas entre o grupo sem crises entre um e cinco anos e o grupo sem crises há mais de cinco anos. Porém, mesmo no caso de crises controladas, o diagnóstico de epilepsia, *per se*, constitui um determinante central para risco adicional de ocorrência de problemas psicossociais e pior QdV tanto nas crianças com epilepsia, como nos pais (Austin et al., 2000; Austin et al., 2006; Carlton-Ford, Miller, Brown, Nealeigh, & Jennings, 1995).

Relativamente às associações entre frequência de crises e percepção de estigma, alguns estudos sugerem que a frequência das crises se associa a níveis superiores de percepção de estigma em relação à epilepsia (Baker et al., 2000; Cianchetti et al., 2015), e maiores necessidades não satisfeitas de informação e apoio (C. Jones & Reilly, 2016; McNelis et al., 2007). No entanto, níveis elevados de percepção de estigma podem estar presentes mesmo nas crianças e adolescentes com crises epiléticas controladas (Rood et al., 2014b). Ainda assim, são geralmente

os pais de crianças com crises mais frequentes, epilepsias de maior gravidade, e os que reportam maiores efeitos secundários da medicação, aqueles que evidenciam maiores preocupações em relação à doença (Cianchetti et al., 2015). Já relativamente às restrições de atividade impostas às crianças com epilepsia, estas parecem fortemente associadas com a frequência das crises (Rodenburg et al., 2013b), ainda que hajam estudos que não apoiam tal associação (e.g., Modi, 2009).

4.2.4.3 *Tempo desde o diagnóstico*

Para os pais de crianças com epilepsia, o momento do confronto com o diagnóstico da doença é habitualmente percebido como uma crise de vida (Modi, 2009; Nguyen, Pertini, & Kettler, 2015; Pianta et al., 1996). Na proximidade temporal do diagnóstico é expectável um decréscimo nos níveis de adaptação psicossocial, paralelo ao ter de lidar com as dificuldades e incertezas evocadas pelo diagnóstico de epilepsia, designadamente ao nível do tratamento (seleção do fármaco antiepilético apropriado, dosagem; (in)tolerância aos efeitos secundários dos fármacos antiepiléticos); das necessidades acrescidas de informação; de supervisão das atividades dos filhos; dos receios associados à revelação do diagnóstico de epilepsia a elementos externos à família (Modi et al., 2017). Geralmente os níveis de stress relatados pelos pais decrescem ao longo do tempo, embora persistam em níveis superiores aos verificados nas famílias com filhos sem epilepsia (Shore et al., 2009).

Resultados de investigações longitudinais com início imediatamente após o diagnóstico de epilepsia da criança mostraram que, em média, as crianças registavam níveis de QdVRS mais baixos na proximidade temporal do diagnóstico (Ferro, 2014; Ramsey et al., 2016; Speechley et al., 2012). Tais valores tendiam a melhorar ao longo dos dois primeiros anos depois do estabelecimento do diagnóstico, com as maiores mudanças a acontecerem durante os seis primeiros meses, seguindo-se mudanças mais lentas no período temporal entre os seis e os 24 meses, estabilizando posteriormente. Os resultados de investigações transversais, com recurso a amostras de doentes com condições crónicas com um tempo de diagnóstico superior a dois anos são menos consistentes. Enquanto alguns estudos reportaram associações negativas significativas entre a duração do diagnóstico e a QdVRS das crianças (Benavente-Aguilar, Morales-Blánquez, Rubio, & Rey, 2004; Ferro, 2014; Ronen et al., 2010), em outros estudos as associações entre duração do diagnóstico e resultados de adaptação específicos (e.g., intensidade de problemas de comportamento ou emocionais) não se revelaram significativas (Rodenburg et al., 2006). Importa ainda atender às evidências de grande variabilidade ao nível das trajetórias de QdVRS, tanto global, como nos vários domínios de vida das crianças, com algumas crianças a registarem melhorias e outras a evidenciarem declínios vários ao longo do tempo (Loiselle et al., 2016; Ramsey et al., 2016).

Relativamente à evolução das atitudes em relação à epilepsia, os resultados de estudos longitudinais sugerem que ao longo dos três primeiros anos no pós-diagnóstico, em média, as atitudes dos pais e das crianças em relação à epilepsia tendem a melhorar, verificando-se as maiores mudanças nos seis primeiros meses do pós-diagnóstico (Ramsey et al., 2016; Rood et al., 2014). Também os níveis de estigma tendem, em média, a diminuir com o tempo, dado que possivelmente reflete uma melhoria nos níveis de informação e de domínio de estratégias de *coping* efetivas para lidar com a condição de saúde, permitindo às famílias reconquistarem um sentimento de controlo sobre a epilepsia (Rood et al., 2014). O tempo desde o diagnóstico constitui, assim, uma variável importante na compreensão dos resultados de adaptação quer de pais, quer de filhos, mas as evidências empíricas a este nível não são absolutamente conclusivas, ou seja, o tempo não constitui necessariamente um elemento facilitador, sendo necessário atender a outras variáveis do contexto e individuais.

Em síntese, apesar de muitas variáveis clínicas da epilepsia, baseadas em indicadores objetivos e reportadas pelos profissionais de saúde apresentarem associações significativas com indicadores positivos de adaptação das crianças com epilepsia e respetivos pais, a percentagem de variância explicada pelas variáveis clínicas é relativamente baixa (Drotar, 1997; Lach et al., 2006; Rodenburg et al., 2006).

5 Lacunas na investigação da adaptação de crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica

Apesar dos esforços observados nas últimas décadas ao nível da investigação no sentido de melhorar o estudo do impacto e determinar fatores de influência na adaptação individual de crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica, existem lacunas importantes na investigação atual que se apresentam e discutem seguidamente. Na reflexão desenvolvida em torno das lacunas, optámos por organizar a sua apresentação em torno de dois grandes planos complementares, o conceptual e o metodológico.

5.1 Plano conceptual

5.1.1 Referenciais teórico-conceptuais

O desenvolvimento verificado ao nível da conceptualização teórica dos processos de adaptação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas em geral (e.g., Kazak, 1989; Wallander & Varni, 1998) tem sido notório nas últimas décadas. Porém, muita da investigação realizada em torno dos aspetos psicossociais na epilepsia pediátrica não apresenta, de forma explícita, questões e hipóteses de investigação fundamentadas em referenciais teóricos sólidos (Austin & Caplan, 2007; Lach et al., 2006). A definição das hipóteses e da metodologia de investigação alicerçada em referenciais teóricos consistentes abre a possibilidade de realização de investigação mais integrada, testando a robustez empírica de partes específicas de modelos conceptuais complexos, e facilitando a seleção e organização de variáveis de investigação específicas. Adicionalmente, o uso consistente de modelos de investigação teoricamente fundados, pode servir de base para a comparação de resultados de estudos levados a cabo em populações crónicas pediátricas distintas.

5.1.2 Epilepsia enquanto condição crónica de saúde pediátrica: A importância dos estudos comparativos com outras condições de saúde pediátricas

Enquanto condição crónica de saúde pediátrica, a epilepsia partilha com outras CCSP, impactos de vária ordem (e.g., exigências de reorganização dos papéis no interior da família, necessidade de monitorização e registo dos sintomas), e apresenta especificidades (e.g., estigma social, natureza episódica dos sintomas). Em face da diversidade de exigências e regimes de tratamento associados às diferentes CCSP, a maior parte dos estudos que investigou os resultados e fatores de adaptação no contexto das CCSP focou-se numa condição específica, aspeto que dificulta a comparação de resultados entre estudos. Estudos comparativos a avaliar eventuais diferenças ao nível de indicadores de adaptação individual das crianças (Hoare et al., 2000; Varni, Limbers, & Burwinkle, 2007) ou da qualidade do funcionamento familiar (Herzer et al., 2010), entre condições crónicas de saúde distintas, onde a epilepsia esteja incluída, revestem-

se de grande utilidade para os prestadores de cuidados de saúde e para os decisores políticos. Em primeiro lugar permitem o fornecimento de pistas importantes para a identificação de populações pediátricas em risco acrescido para evidenciar níveis inferiores de adaptação psicossocial. A este nível importa referir que apesar da epilepsia, por se tratar de uma condição de saúde que afeta o sistema nervoso central, ser considerada uma condição de saúde de risco acrescido para piores resultados de adaptação (Rodrigues & Patterson, 2007; Wade et al., 2006; Wallander & Varni, 1998), são escassas as evidências empíricas comparativas com outras condições crónicas de saúde que atestem tal assunção. Em segundo lugar os estudos comparativos são passíveis de clarificar as especificidades e as comunalidades do impacto de condições crónicas de saúde distintas ao nível de indicadores de adaptação dos elementos individuais da família e do funcionamento familiar como um todo (Drotar, 1997; Herzer et al., 2010). Os resultados deste tipo de estudos poderão ter repercussões clínicas, designadamente na sustentação de modelos de atendimento multidisciplinar, e no apoio à realização de intervenções centradas na família. Neste momento, para além de escassos, os resultados dos estudos comparativos incluindo várias condições de saúde, são pouco consistentes, e têm geralmente um enfoque meramente descritivo. Se há estudos que não revelam diferenças significativas entre famílias com CCSP distintas, designadamente ao nível das variáveis familiares (Herzer et al., 2010), em outros tal acontece (Austin, 1990; Hoare et al., 2000). Relativamente aos indicadores de adaptação individual de filhos, e apesar da relativa consistência dos resultados em colocarem as crianças com epilepsia numa situação de risco acrescido, quando comparado com outras CCSP (e.g., Austin et al., 1996; Moreira, Carona, et al., 2013), registam-se exceções na literatura (Ingerski et al., 2010; Varni et al., 2007). Se por um lado estas inconsistências ao nível dos resultados dos estudos comparativos podem pôr a descoberto fragilidades ao nível das metodologias de avaliação, por outro, sugerem que a presença ou ausência de doença é um dos muitos determinantes para a adaptação, existindo vários tipos de fatores contextuais passíveis de facilitar ou dificultar a adaptação dos membros da família. Os dados relativos ao impacto diferencial de CCSP distintas ao nível de indicadores de adaptação dos pais (e.g., QdV) são também ainda muito escassos.

5.1.3 Concetualização das variáveis familiares na investigação da adaptação na epilepsia pediátrica

A compreensão da adaptação no contexto da epilepsia pediátrica tem carecido de uma abordagem integrada, compreensiva e multisistémica, que considere as formas complexas de interação entre os vários sistemas relevantes na vida dos doentes pediátricos. Neste contexto, o sistema familiar assume lugar de destaque, dado o papel amplamente reconhecido dos pais na promoção do desenvolvimento e adaptação das crianças com condições crónicas de saúde,

designadamente, no apoio da gestão diária da condição de saúde (Drotar, 1997; Thompson & Gustafson, 1996).

Apesar do consenso em torno da noção de que uma CCSP, tal como a epilepsia, afeta e é afetada pela família como um todo (Austin, 1996; Palermo & Chambers, 2005), e dos últimos anos terem registado uma tendência maior para a consideração de múltiplos informantes e perspetivas na família (Verhey et al., 2009; Wagner et al., 2012), a investigação continua a ter como principal foco as crianças com epilepsia de uma forma isolada. Os pais, irmãos, o sistema familiar como um todo ou as interações do sistema familiar com outros sistemas ou níveis sistémicos, têm sido menos incluídos na concetualização e operacionalização das investigações. Tal acaba também por ter reflexo em termos de intervenção clínica, com atuações pouco integradas ao nível da consideração de outros componentes do sistema, que não as crianças, designadamente ao nível das relações entre a família e outros sistemas como a escola ou o sistema de saúde.

Conceptualizar e avaliar variáveis familiares globais, constitui uma tarefa difícil e complexa (Holmbeck & Devine, 2011). Apesar do reconhecimento da importância da família na adaptação e desenvolvimento das crianças em geral, e no contexto de uma condição crónica de saúde, regista-se uma escassez de estudos a analisar o papel dos fatores familiares globais, nos resultados de adaptação individual dos membros da família no contexto da epilepsia pediátrica. O funcionamento familiar constitui um fator central para uma gestão bem-sucedida de uma condição crónica no contexto familiar (Fiese, Spagnola, et al., 2008; Knafl et al., 2013). Investigação prévia revelou que a coesão familiar apoia os comportamentos de gestão da condição de saúde, designadamente através do estabelecimento de rotinas familiares regulares relacionadas com o tratamento ou com a toma da medicação (Fiese, Winter, et al., 2008). Um crescente número de estudos na área da Psicologia Pediátrica tem demonstrado que a qualidade das experiências e práticas relacionadas com a gestão familiar da CCSP assume um papel central na compreensão da adaptação dos membros individuais da família no contexto de uma CCSP (Knafl et al., 2013; Weissberg-Benchell et al., 2009). O papel das variáveis familiares na gestão familiar diária da epilepsia pediátrica permanece largamente inexplorado. Tendo como referência a categorização de Alderfer e colegas (2008) em torno das variáveis e medidas familiares que distingue variáveis familiares globais gerais e variáveis familiares globais no contexto das CCSP, importa fazer uma análise mais detalhada e diferenciada do papel de diferentes tipos de variáveis familiares, bem como explorar eventuais trajetórias de influência entre as mesmas.

5.1.4 Temas e conteúdos relevantes na adaptação de crianças e pais

Como referem Wallender e Varni (1998) “although conceptually driven research has increased considerably over the recent past (cf. Eiser, 1990), additional and more varied models need to be proposed. These should incorporate richer perspectives, novel concepts, and more

explicit causal processes(...). For example, more attention should be paid to intrapersonal correlates of adjustment, including the range of traditional personality traits and biologically linked temperament to situation-specific cognitive-affective processes” (p. 42). Por exemplo, a análise dos processos de comparação social, designadamente o papel desempenhado pelas diferenças individuais dos pais com crianças com CCSP, ao nível da respetiva orientação para a comparação social, permanece por explorar. Estes processos revestem-se de grande complexidade e diferenciação, tanto a nível conceptual como metodológico, sendo fundamental ter disponíveis medidas fiáveis e robustas para avaliar esta variável.

5.2 Plano metodológico

5.2.1 Tipo de questões de investigação

Ao longo das últimas décadas, as metodologias e conteúdos de investigação em torno dos resultados e processos de adaptação individual e familiar no contexto da epilepsia pediátrica têm sofrido grande evolução. A preocupação inicial em descrever o impacto negativo da epilepsia na criança e na família, fundada em indicadores de ajustamento psicológico, designadamente através da comparação com outros grupos (população geral; famílias com outras condições de saúde), foi dando lugar a um interesse crescente na explicação da heterogeneidade dos resultados individuais de adaptação entre sujeitos confrontados com a mesma CCSP, através do estudo das variáveis preditoras. Porém, é provável que o efeito das variáveis identificadas com preditoras não seja exercida de modo exclusivamente direto, e/ou independentemente de certas condições contextuais (Wallander & Varni, 1998).

A investigação dos mecanismos de influência permite-nos analisar os possíveis efeitos indiretos das variáveis identificadas como preditoras, por via de outras variáveis (análises de mediação) nos resultados de adaptação, bem como examinar as condições específicas em que as associações entre variáveis ocorrem (análises de moderação) (Holmbeck, 2002b; Rose, Holmbeck, Coakley, & Franks, 2004). Em contrapartida, e apesar do consenso em torno do carácter promissor das abordagens multinível como a de Kazak e colaboradores (2009), é difícil incluir todos os níveis de construtos num único estudo de investigação..

Da revisão de literatura efetuada, constatamos uma escassez de investigação a examinar mecanismos específicos de influência na adaptação das crianças com epilepsia, e respetivos pais. Identificar e esclarecer os mecanismos de atuação dos fatores de influência que colocam as crianças com epilepsia e seus pais em risco acrescido para dificuldades de adaptação, como também nos fatores que protegem os indivíduos em contexto de adversidade (Carona, 2013; Rolland & Walsh, 2006) viabiliza quer a identificação precoce das famílias em risco de piores resultados de adaptação, bem como o fornecimento de pistas empíricas para a estruturação de

programas de prevenção e de intervenção mais eficazes com populações específicas (Luthar & Cicchetti, 2000).

5.2.2 Avaliação das variáveis familiares

Na avaliação das variáveis familiares no contexto das CCSP é essencial ter disponíveis medidas fiáveis e válidas que permitam uma melhor compreensão quer dos vários aspetos do funcionamento familiar afetados pela CCSP, quer dos aspetos do funcionamento familiar passíveis de influenciar a adaptação das crianças e das famílias, ao longo do tempo (Alderfer et al., 2008; Barakat & Alderfer, 2011). Adicionalmente importa que essas medidas permitam: identificar famílias em risco para encaminhamento para intervenções atempadas; informar a estruturação de intervenções mais efetivas; avaliar o impacto das intervenções realizadas (Barakat & Alderfer, 2011; Holmbeck & Devine, 2011). Permanece um fosso grande entre a qualidade dos modelos conceptuais de compreensão dos processos de adaptação no contexto das CCSP e a capacidade dos instrumentos de avaliação familiar para captarem esses mesmos aspetos (Holmbeck & Devine, 2011). Deste modo, as inconsistências encontradas ao nível dos resultados da avaliação familiar podem ser reflexo da diversidade de modos em como o funcionamento familiar é conceptualizado e do tipo de instrumentos de avaliação utilizados (formato, abrangência). Importa refletir e organizar essa diversidade, de forma a conseguirmos ter uma visão mais integrada da investigação a este nível. O referencial proposto por Alderfer e colegas (2008), e exposto no capítulo anterior, constitui um bom ponto de partida para a organização de variáveis e de instrumentos de avaliação familiar utilizadas na área da psicologia pediátrica. Apesar da robustez psicométrica das medidas familiares globais gerais e a possibilidade da sua utilização com diferentes populações clínicas, vários autores (e.g., Deatrick et al., 2006; Drotar, 1997) recomendam que, sempre que possível, é importante complementar a utilização destas medidas com outras mais sensíveis às especificidades da experiência da adaptação das crianças e famílias no contexto da CCSP, e sua variação ao longo do tempo.

5.2.3 Caracterização das variáveis clínicas e sociodemográficas das amostras

Outra das lacunas patente na investigação no contexto da epilepsia pediátrica prende-se com a caracterização inconsistente ou pouco clara das variáveis clínicas (e.g., gravidade da epilepsia, presença de atraso de desenvolvimento, tempo desde o diagnóstico) e/ou sociodemográficas (e.g., idade, NSE) das amostras em estudo.

As epilepsias e síndromes epiléticas congregam um largo espectro de condições clínicas, que vão desde as formas mais benignas e por vezes transitórias, até situações graves e incapacitantes (Institute of Medicine, 2012). O nível de exigências colocadas às famílias com pacientes com duplo diagnóstico, sobretudo nos casos de crianças com epilepsia e com atraso global do desenvolvimento associado, é muito distinto do colocado às famílias cujas crianças com

epilepsia apresentam capacidades intelectuais dentro dos parâmetros da normalidade, frequentam o ensino regular, e com resposta rápida ao tratamento (Buelow et al., 2006; Sillanpaa, Jalava, Kaleva, & Shinnar, 1998). Dados de investigação longitudinal têm revelado que o tempo desde o diagnóstico é passível de influenciar várias dimensões do funcionamento individual e familiar (e.g., QdVRS das crianças, perceção de estigma, sintomas depressivos das mães), registando-se as maiores flutuações nas trajetórias de diferentes variáveis nos primeiros seis meses após o estabelecimento do diagnóstico; depois deste período temporal inicial os resultados nas variáveis tendem a estabilizar (Ferro et al., 2011b; Loiselle et al., 2016). Apesar destas evidências há estudos que não atendem ao tempo de duração do diagnóstico como critério de inclusão/exclusão na amostra (e.g., Tzoufi et al., 2005). Adicionalmente, a utilização de amostras de grande amplitude etária, sem a análise ou controlo adequado da possível influência da variável idade/faixa etária nos resultados, resulta na agregação indiferenciada de participantes que estão envolvidos em tarefas desenvolvimentais normativas muito distintas. A não consideração de aspetos de caracterização clínica ou sociodemográfica aquando da definição dos critérios de inclusão/exclusão da amostra de investigação ou aquando da análise e discussão dos resultados pode comprometer a solidez das conclusões retiradas e da generalização dos resultados (Ferro, 2014).

5.2.4 Tipo de indicadores de adaptação utilizados

Ao nível dos indicadores dos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, a grande maioria dos estudos disponíveis na literatura reflete o foco tradicional nas manifestações psicopatológicas, designadamente nas perturbações de ansiedade, depressão, ou nos problemas de comportamento (Colin Reilly, Agnew, & Neville, 2011; Rodenburg et al., 2005).

Reconhecendo a multiplicidade de níveis de impacto que a epilepsia é passível de ter nos sujeitos individuais, e que vão para além da dimensão psicológica, importa dar consistência ao privilégio pelo recurso a indicadores de adaptação positivos, compreensivos e multidimensionais, de que são exemplo os instrumentos de avaliação da QdV ou da QdVRS dos sujeitos individuais (Ramsey et al., 2016; Sabaz et al., 2003). Importa reconhecer que o acesso limitado aos cuidados de saúde poderá comportar barreiras à realização de avaliações mais exaustivas e demoradas ou intrusivas (Barakat & Alderfer, 2011). Apesar da robustez psicométrica das medidas genéricas de avaliação da QdV e possibilidade da sua utilização com diferentes populações, é importante complementar a utilização destas medidas com outras mais sensíveis às especificidades da experiência da adaptação à condição epiléptica na família e sua variação ao longo do tempo.

5.2.5 Auto e hetero-relatos

Grande parte da investigação realizada em torno da adaptação individual das crianças na epilepsia pediátrica tem-se focado no grupo etário das crianças (0-12 anos), e recorrido não às próprias crianças, mas aos seus pais, como informadores (e.g., Ramsey et al., 2016; Y. Wu et al., 2014). Esta questão – transversal à investigação clínica em crianças – e do recurso preferencial aos *proxies* em detrimento do recurso aos auto-relatos, pela circunstância da própria faixa etária utilizada, tem merecido ampla reflexão (Caplan, 2015). Na área da epilepsia pediátrica vários estudos alertam para o grau baixo a moderado de concordância entre pais e filhos, ao nível dos relatos de comportamentos e emoções, designadamente de avaliações da QdVRS da criança (Taylor, Jacoby, Baker, & Marson, 2011; Verhey et al., 2009). Independentemente da CCSP, os cuidadores familiares (pais/mães) tendem a reportar níveis inferiores QdVRS dos seus filhos, comparativamente aos reportados pelas próprias crianças e adolescentes (Silva, Crespo, Carona, Bullinger, & Canavarro, 2015). As áreas onde essa discordância é mais saliente e consistente, é ao nível das preocupações correntes e necessidade de manter certos temas secretos (Lach et al., 2006; Ronen et al., 2003a; Verhey et al., 2009).

Adicionalmente, alguns estudos revelam associações negativas significativas entre ajustamento psicológico dos pais e os hetero-relatos dos pais da QdVRS dos seus filhos, especialmente entre mães (E. Davis, Davies, Waters, & Priest, 2008; Ferro et al., 2011a; Moreira, Frontini, et al., 2013). Ainda assim, os resultados de um estudo longitudinal recente onde se contrastam medidas de QdVRS das crianças com epilepsia baseadas nos próprios relatos das crianças/adolescentes (8-14 anos) ou nos relatos dos pais, apontem para mais semelhanças do que diferenças (Ferro et al., 2017). Os investigadores precisam de ter em atenção que ao utilizarem os hetero-relatos dos pais, possivelmente estarão a lidar com um tipo de informação que é ponderada de forma diferente à obtida diretamente da criança (Ronen et al., 2003b). Ainda assim, os hetero-relatos dos pais, suplementam a nossa compreensão da QdVRS das crianças, adicionando uma dimensão a ser tomada em consideração, tanto clínica, como empiricamente, importante.

5.2.6 Interdependência dos dados diádicos

Uma assunção subjacente à utilização dos métodos convencionais de análise estatística de dados nas ciências sociais e do comportamento é a da independência das observações entre sujeitos que compõem a amostra (Marôco, 2014). Porém, quando se faz uso dos resultados dos questionários preenchidos por crianças e respetivos cuidadores familiares/pais, é muito provável que as características e resultados dos dois membros da díade sejam mais semelhantes entre si, do que entre duas pessoas que não constituem uma díade, ou seja, que os resultados estejam correlacionados (Driscoll, Schatschneider, McGinnity, & Modi, 2012; D. Kenny, Kashy, & Cook,

2006). Como refere Kenny (2011) “It should be clear that when a family member is assessed that measurement reflects not only the respondent but also reflects the other family members, the respondent’s relationship to the other family members, and the whole family” (p.630). No caso específico das relações pais-filhos no contexto da epilepsia pediátrica, crianças com epilepsia e seus pais partilham características, estão expostos a experiências e fatores de influência comuns, e enfrentam, de forma conjunta, as preocupações e desafios adicionais relacionados com a presença da epilepsia nas suas vidas. É neste contexto partilhado de desenvolvimento que, ao longo do tempo, têm lugar influências mútuas e permanentes entre pais e crianças, ao nível de comportamentos, sentimentos e pensamentos (Fiese & Sameroff, 1989).

Apesar da interdependência entre membros da díade ser reconhecida e enfatizada, as questões de investigação e as abordagens de análises de dados no contexto da epilepsia pediátrica raramente têm contemplado o impacto que a experiência relacional partilhada entre pais e filhos pode ter nos resultados de adaptação individual de pais e de filhos, focando-se preferencialmente nos dados de pais ou de filhos, em separado. Para além disso, a maior parte dos estudos não inclui amostras de pais e crianças, e quando inclui, habitualmente as influências transacionais não são analisadas; mesmo quando uma mesma variável dependente é avaliada por pais e por filhos em simultâneo, esses dados diádicos são frequentemente tratados – do ponto de vista de análise estatística – como se de dados independentes se tratassem (Kenny et al., 2006). A opção de analisar os dados separadamente, por recurso aos métodos tradicionais de análise de regressão múltipla, ao invés de utilizar metodologias de análise diádica, acarreta problemas de vária ordem. A violação da assunção de independência de observações, mesmo em pequenas proporções, conduz geralmente ao acréscimo das estimativas dos erros-padrão dos parâmetros, fazendo com que os resultados dos testes estatísticos sejam imprecisos, e a significância estatística enviesada (Cook & Kenny, 2005; Marôco, 2014). Para além disso, analisar os dados separadamente, pela divisão da amostra em duas partes, conduz a uma diminuição do poder estatístico das análises, o que faz com que determinados resultados possam não ser detetados; bem como a interpretações parcelares e pouco integradas dos resultados, uma vez que se está a negligenciar uma fonte importante de influência - a interdependência exercida entre membros da díade (Kenny, 2011).

De acordo com o Kenny e colegas (2006), sempre que estamos na presença de não independência de observações, a díade, e não os sujeitos individuais, deve ser a unidade de análise a considerar. Em tais circunstâncias deve-se privilegiar o recurso a metodologias diádicas de análises de dados que contemplem a existência de efeitos do parceiro (*partner* ou *crossover effects*), isto é, do facto de as características de cada um dos membros da díade influenciarem as características do outro membro da díade, e vice-versa, para além dos efeitos individuais em cada um dos grupos separadamente (*actor effects*) (Cook & Kenny, 2005). Do nosso

conhecimento, a adoção de uma perspectiva diádica pais-filhos que tome em consideração as influências mútuas entre crianças com epilepsia e seus pais (díade filhos/a– pai/mãe) e consequente análise dos efeitos parceiro, constituem áreas pouco exploradas no contexto da adaptação individual de pais e de filhos na epilepsia pediátrica.

CAPÍTULO II

ENQUADRAMENTO METODOLÓGICO

I Apresentação do projeto de investigação

O presente projeto foi integrado na linha de investigação “Relações, Desenvolvimento e Saúde” do Centro de Investigação em Neuropsicologia e Intervenção Cognitivo-Comportamental (Unidade de I&D da Fundação para a Ciência e Tecnologia), sediado na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra.

No âmbito deste projeto foram desenvolvidos um estudo de revisão de literatura e cinco estudos empíricos, que foram planificados de forma a dar resposta a lacunas identificadas na revisão da literatura e assim contribuir para uma melhor compreensão dos processos envolvidos na adaptação de crianças e adolescentes com epilepsia e os seus pais em Portugal. Dos seis estudos apresentados, um encontra-se publicado numa revista nacional (Estudo I), quatro encontram-se publicados em revistas internacionais (Estudos III, IV, V, VI) e o restante encontra-se submetido para publicação (Estudo II). Tratando-se de estudos independentes, que resultam de diferentes recortes da amostra total, e orientados por objetivos e metodologias distintas, o presente capítulo visa proporcionar uma perspetiva global do projeto de investigação mais vasto onde se inscrevem.

2 Objetivos

2.1 Objetivos gerais

Tendo por base o estado da arte e no sentido de colmatar lacunas identificadas na literatura atual sobre a adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, foram delineados os seguintes objetivos:

1. Mapear os resultados de investigação sobre a adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, tendo por base o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009).

2. Validar para o contexto português instrumentos de avaliação individual e familiar relevantes para a compreensão dos processos de adaptação no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas (CCSP).

3. Testar a existência de diferenças entre famílias no contexto da epilepsia pediátrica e famílias no contexto de outras condições crónicas de saúde pediátricas (asma, obesidade e diabetes) ao nível de variáveis familiares globais (gerais – coesão familiar; e no contexto de condições crónicas de saúde pediátricas – gestão familiar da condição crónica), de variáveis individuais (orientação para a comparação social) e indicadores de adaptação individual de crianças (QdVRS) e seus pais (sintomas ansiosos e depressivos e QdV).

4. Compreender a variabilidade dos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais. Para tal, pretende-se a) identificar fatores modificáveis, em diferentes níveis sistémicos associados a resultados da adaptação individual das crianças e adolescentes com epilepsia e dos seus pais; b) examinar processos explicativos através dos quais estes fatores, com destaque para os fatores do funcionamento familiar, estão associados aos resultados de adaptação.

5. Analisar processos de influência mútua/transacionais, entre elementos da díade pais-filhos, ao nível dos fatores e resultados de adaptação.

2.2 Objetivos específicos

Os objetivos específicos para cada um dos estudos que integram a presente investigação são descritos no Quadro I. O Estudo I constitui um estudo de revisão de literatura e os restantes cinco são estudos empíricos.

Quadro I - Objetivos específicos da investigação

| Estudos | Objetivos específicos |
|--|--|
| Estudo I (revisão de literatura) | <p>-Síntese e integração dos principais resultados de investigação ao nível dos diferentes níveis sistémicos onde a adaptação individual no contexto da epilepsia pediátrica tem sido situada: dos microssistemas familiares (individual, diádico, família como um todo) e da doença, aos mesossistemas (relações com os sistemas escolar e de saúde), exossistema (redes de apoio social comunitário) e macrosistema (crenças culturais e sociais e estigma social em relação à epilepsia);</p> <p>-Identificação de lacunas conceituais e metodológicas patentes na investigação atual.</p> |
| Estudo II (empírico) | <p>-Desenvolver a versão portuguesa da INCOM, e examinar as respetivas características psicométricas (estrutura fatorial, fiabilidade, e validade convergente) em duas amostras com pais de crianças com condições crónicas de saúde pediátricas;</p> <p>-Comparar a orientação para a comparação social entre pais com filhos com condições crónicas pediátricas distintas: epilepsia, asma, diabetes e obesidade.</p> |
| Estudo III (empírico) | <p>-Comparar dimensões do funcionamento familiar global geral (coesão familiar) e no contexto da gestão familiar de CCSP (dificuldades na vida familiar e mutualidade parental), e indicadores de adaptação de pais (sintomas ansiosos e depressivos) e de filhos (QdVRS) em famílias no contexto de quatro condições crónicas de saúde distintas: asma, diabetes, epilepsia e obesidade;</p> <p>-Examinar os efeitos diretos e indiretos da coesão familiar, por via de duas dimensões da gestão familiar das condições crónicas de saúde pediátricas (mutualidade parental e dificuldades na vida familiar), nos resultados de adaptação individual de pais e de filhos;</p> <p>-Testar se as associações diretas e indiretas hipotetizadas se mantêm invariantes nos quatro grupos clínicos considerados.</p> |
| Estudo IV (empírico) | <p>-Examinar as associações individuais e diádicas entre coesão familiar, estigma social percebido e QdV, em díades de crianças com epilepsia e um dos pais (cuidador principal para questões de saúde);</p> <p>-Testar o papel mediador do estigma social em relação à epilepsia nas associações individuais e diádicas entre coesão familiar e QdV;</p> <p>-Analisar a invariância do modelo de mediação diádico hipotetizado entre grupos de gravidade da epilepsia (baixa vs. moderada/elevada); nível socioeconómico (baixo vs. médio/elevado) e etário (crianças vs. adolescentes) distintos.</p> |
| Estudo V (empírico) | <p>-Examinar as associações entre o significado dos rituais familiares e os resultados de adaptação dos pais de crianças com epilepsia (sintomas de ansiedade e depressão e QdV);</p> <p>-Testar o papel mediador de duas dimensões da competência parental (satisfação e eficácia), como possíveis caminhos através dos quais os rituais familiares se associam aos resultados de adaptação dos pais;</p> <p>-Analisar a invariância do modelo de mediação hipotetizado entre grupos de gravidade da epilepsia (baixa vs. moderada/elevada); nível socioeconómico (baixo vs. médio/elevado) e grupo etário (crianças vs. adolescentes) distintos.</p> |
| Estudo VI (empírico) | <p>-Testar as associações entre percepções parentais de gestão familiar da epilepsia (nas suas dimensões específicas de dificuldades na vida familiar e vida diária da criança) e dois indicadores de adaptação das crianças (QdVRS e estigma social percebido);</p> <p>-Examinar o papel moderador da orientação para a comparação social dos pais de crianças com epilepsia, nas associações entre as percepções parentais de gestão familiar da epilepsia e os dois indicadores de adaptação das crianças.</p> |

3 Opções metodológicas

3.1 Desenho de investigação e respetivas fases

O desenho metodológico do projeto integrou uma componente preparatória (Fase I) seguida da implementação e concretização de duas componentes quantitativas independentes subsequentes, de natureza transversal (Fases II e III).

Desenho de investigação e respetivas fases:

Fase I: Revisão da literatura;

Fase II: Estudos multicondições;

Fase III: Estudos na epilepsia pediátrica.

Na Fase I procedemos à revisão de literatura em torno da adaptação individual e familiar no contexto da epilepsia pediátrica, tendo por base o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), daqui resultando o Estudo I de revisão de literatura. Atendendo à abrangência do modelo socioecológico, a seleção de conteúdos para a revisão teve como foco estudos com dados relevantes para a adaptação de crianças com epilepsia e/ou pais. Não se tratou de uma revisão sistemática, uma vez que não incluiu todos os conteúdos relevantes nos vários níveis socioecológicos (e.g. temas como a adaptação dos irmãos ou o impacto nas dinâmicas conjugais não foram alvo de análise).

As Fases II e III do projeto, referentes à implementação e concretização dos estudos empíricos realizados, integraram duas componentes quantitativas de natureza transversal, que se sucederam temporalmente. Apesar das limitações inerentes aos estudos transversais, este tipo de estudos podem ser uma ferramenta útil para a identificação de associações entre variáveis sobre as quais existe pouca informação disponível, que depois poderão ser examinadas em maior profundidade em estudos longitudinais futuros. Para além disso, considerou-se que o recurso a um desenho de investigação transversal seria a opção metodológica que do ponto de vista de custo-benefício representaria a melhor solução, atendendo às dificuldades na recolha de amostra na epilepsia (baixa prevalência da epilepsia pediátrica, elevada incidência de comorbilidades), e que conduzia a que muitos sujeitos/famílias fossem considerados não elegíveis para integrar a amostra.

A primeira componente quantitativa (Fase II) assentou numa amostra composta por famílias com quatro condições crónicas de saúde distintas (epilepsia, asma, diabetes e obesidade) e visou, por um lado, elaborar as versões portuguesas dos instrumentos de avaliação relevantes para a área da psicologia pediátrica, seguindo as recomendações internacionais para o efeito (Hambleton, Merenda, & Spielberger, 2004), e examinar as respetivas características

psicométricas¹⁰; por outro, comparar famílias no contexto da epilepsia pediátrica relativamente ao de outras três condições crónicas de saúde pediátricas¹¹, ao nível de indicadores de adaptação de pais e de filhos, bem como das características do funcionamento familiar e individual, e em simultâneo testar os mecanismos explicativos de atuação dessas variáveis na adaptação de pais e de filhos, e respetiva (in)variância.

A segunda componente quantitativa do projeto (Fase III) integrou exclusivamente famílias com crianças e adolescentes com epilepsia e um dos seus pais (cuidador familiar principal para questões de saúde). Os estudos desenvolvidos nesta fase do projeto visaram, no geral, analisar os resultados e processos de adaptação (individual e familiar) em crianças com epilepsia e seus pais, tanto a nível individual (crianças e pais, separadamente) como diádico, e isto depois da crise inicial do confronto com o diagnóstico. Foram recolhidos dados junto das crianças com epilepsia, um dos seus pais e do médico assistente.

3.2 Participantes e procedimentos de recolha de amostra

O processo de recolha da amostra total decorreu nas consultas externas dos serviços de pediatria de quatro unidades hospitalares públicas Portuguesas: Hospital Distrital de Santarém EPE (HDS-EPE), Centro Hospitalar Leiria-Pombal EPE (CHLP-EPE); Centro de Desenvolvimento da Criança Dr. Luiz Borges, Hospital Pediátrico de Coimbra, do Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra EPE (CHUC-EPE); e no Centro de Desenvolvimento Torrado da Silva do Hospital Garcia de Orta (HGO - EPE).

A recolha da amostra total repartiu-se em duas fases. A recolha de dados referentes à Fase II (amostra multicondições) decorreu de janeiro de 2012 a fevereiro de 2013, de forma simultânea em três unidades hospitalares Portuguesas (HDS-EPE, HGO-EPE, CHLP-EPE), e centrou-se unicamente na perspetiva de um dos pais em cada família (Estudos II e III).

A recolha de dados referente à Fase III (díades de crianças com epilepsia e um dos seus pais) decorreu entre julho de 2012 e setembro de 2014, em três unidades hospitalares em simultâneo (CHLP-EPE, HGO-EPE, CHUC-EPE) e integrou três tipos de informantes: pais, crianças com epilepsia e médico assistente (Estudos IV, V e VI).

¹⁰ O estudo referente ao exame das características psicométricas da FaMM (Knafl et al., 2011) está ainda em desenvolvimento, pelo que não será apresentado na presente dissertação.

¹¹ A seleção das três outras condições de saúde - asma, diabetes e obesidade - para o estudo comparativo teve na sua base dois critérios. Por um lado, o facto destas condições de saúde apresentarem pontos de diferença e de semelhança com a epilepsia (curso, previsibilidade, estigma associado, visibilidade dos sintomas), possibilitando deste modo um quadro comparativo diverso. Em segundo lugar, atendendo à prevalência crescente destas condições entre a população pediátrica (G. F. Miller, Coffield, Leroy, & Wallin, 2016; Roberts & Steele, 2017). De acordo com dados nacionais oficiais, a obesidade é considerada um problema de saúde pública, com uma prevalência em idade escolar próxima das 14%, e com 32% das crianças a apresentarem excesso de peso (Rito & Graça, 2015). A asma regista uma taxa de prevalência próxima dos 12% na faixa etária dos 7-14 anos, constituindo um dos motivos mais frequentes de idas às urgências e internamento hospitalar, bem como de restrição de atividades em crianças e adolescentes (Antunes, Bárbara, & Gomes, 2013; Pearce et al., 2007). A diabetes infantil tem uma prevalência estimada de 0.16%, registando com uma tendência de subida significativa na última década (Observatório Nacional da Diabetes, 2016).

Os critérios de inclusão e exclusão, por estudo, são apresentados nos Quadro 2 (Fase II) e Quadro 3 (Fase III)

Quadro 2 - Critérios de inclusão/exclusão e descrição das amostras utilizadas em cada estudo empírico da Fase II do projeto de investigação

| Fase II do projeto de investigação | Estudos empíricos | |
|--|---|---------------------------|
| | II | III |
| Critérios de inclusão | | |
| Família com criança com diagnóstico de asma, diabetes tipo I, obesidade ou epilepsia, estabelecido por médico pediatra de acordo com critérios internacionais (ICD-10) | ✓ | ✓ |
| Na presença de comorbilidades com outras condições médicas, o diagnóstico clínico é considerado pela família como o principal foco de preocupação médica | ✓ | ✓ |
| Duração do tempo desde o diagnóstico \geq a 6 meses | ✓ | ✓ |
| Criança com idade \leq a 20 anos | ✓ | ✓ |
| Ser pai ou mãe cuidador familiar principal para as questões de saúde da criança | ✓ | ✓ |
| Pai ou mãe tem um companheiro/cônjuge com quem partilha atualmente as responsabilidades parentais | | ✓ |
| Critérios de exclusão | | |
| Presença de atraso global de desenvolvimento (e.g., Síndrome de Down) ou doença psiquiátrica grave da parte da criança ou pai respondente | ✓ | ✓ |
| Nível de compreensão da língua Portuguesa que inviabiliza o preenchimento autónomo dos questionários | ✓ | ✓ |
| O cuidador familiar principal para as questões de saúde da criança é outro familiar que não o pai ou a mãe | ✓ | ✓ |
| Participantes incluídos em cada Estudo | | |
| Totais (N) | 301 (amostra de teste) + 192 (amostra de validação) | 256 |
| Por grupo clínico (n) | Amostra teste: A=88; D=63; E=61; O=89 Amostra validação ¹² : E=192 | A=77; D=55; E=52; O=79 |

Legenda: A=Asma; D=Diabetes; E=Epilepsia; O=Obesidade

¹² Esta segunda amostra foi utilizada somente para efeitos de validação da solução fatorial resultante dos estudos com a versão portuguesa da INCOM, e foi recolhida já no âmbito da Fase III do projeto de investigação, sendo partilhada com o estudo IV.

Quadro 3 - Critérios de inclusão/exclusão e descrição das amostras utilizadas em cada estudo empírico da Fase III do projeto de investigação

| Fase III do projeto de investigação | Estudos empíricos | | |
|--|-------------------------|--------------|-------------------|
| Critérios de inclusão | IV | V | VI |
| Família com criança com diagnóstico de epilepsia estabelecido por um (neurologista) pediatra, segundo os critérios internacionais vigentes (ICD-10; ILAE, 2010). | ✓ | ✓ | ✓ |
| Duração do tempo desde o diagnóstico da criança \geq a 6 meses | ✓ | ✓ | ✓ |
| Idade da criança compreendida entre os 8-20 anos | ✓ | ✓ | ✓ |
| Ser pai/mãe cuidador familiar principal para as questões de saúde da criança | ✓ | ✓ | ✓ |
| Critérios de exclusão | | | |
| Atraso global do desenvolvimento (e.g., Síndrome de Down) ou atraso cognitivo ¹³ | ✓ | ✓ | ✓ |
| Criança com comorbidade não-neurológica de saúde a requerer medicação diária ¹⁴ (e.g., asma, diabetes) | ✓ | ✓ | ✓ |
| Nível de compreensão da língua Portuguesa que inviabiliza o preenchimento autónomo dos questionários | ✓ | ✓ | ✓ |
| O cuidador familiar principal para as questões de saúde da criança é outro familiar que não o pai ou a mãe | ✓ | ✓ | ✓ |
| Participantes incluídos | | | |
| Amostra total (N) | Díades Pai/Criança =221 | | |
| Amostra por Estudo (n) | Díades | Pai/mãe= 200 | Díades |
| Total de participantes por estudo (N) | P/C=192 N=384 | N =200 | P/C=201 N =402 |

Os tamanhos finais das amostras para cada um dos cinco estudos empíricos desenvolvidos, dois baseados na amostra multicondições (N=301) e três baseados na amostra específica da epilepsia (N=221), variaram ligeiramente, devido a diferenças aleatórias no completamento dos questionários para cada um desses estudos.

Em cada uma das unidades hospitalares parceiras do projeto, nas Fases II e III, existia um profissional de saúde - médico (neuro)pediatra, enfermeiro, psicólogo - responsável pela colaboração com a investigadora no local. Assim, durante cada um dos períodos em que

¹³ A exclusão da presença de atraso cognitivo foi aferido tendo por base o indicador Quociente de inteligência (QI) global < a 70, sempre que a informação relativa à avaliação do funcionamento cognitivo global estivesse disponível nos registos clínicos do doente em seguimento nas consultas de epilepsia, ou com base na informação disponibilizada pela família, designadamente de benefício da medida (e) - currículo específico individual, do artigo 16º do D.L. 3/2008, aplicável aos alunos com necessidades educativas especiais de carácter permanente, que pode ser considerado um indicador objetivo da presença de graves problemas na aprendizagem global a requerer amplas alterações no currículo, com redefinição generalizada dos objetivos educacionais. A consideração deste critério de exclusão é justificável atendendo a que a segunda componente quantitativa contemplava a recolha de dados junto das próprias crianças com epilepsia.

¹⁴ Dada a elevada prevalência de dificuldades de aprendizagem específicas (e.g., dislexia, disortografia) bem como de problemas emocionais, do comportamento e do neurodesenvolvimento (e.g., PHDA) entre a crianças com diagnóstico de epilepsia, a presença destas comorbidades não constituiu motivo para exclusão da amostra.

decorreu a recolha da amostra, os ficheiros clínicos das crianças e adolescentes em acompanhamento nas consultas externas dos referidos serviços, que tinham consulta de especialidade agendada para a semana seguinte, eram escrutinados com antecedência pelo clínico de ligação e pela investigadora responsável pelo projeto, no sentido de se proceder a uma pré-seleção das famílias elegíveis para inclusão na amostra. Todos os dados foram recolhidos pela investigadora responsável pelo projeto, com exceção de uma porção da subamostra de diabetes, recolhida no HGO-EPE, que foi realizada por uma assistente de investigação com formação superior em Psicologia Clínica. Para cada uma das amostras recolhidas, recorreu-se a um processo de amostragem consecutiva.

No dia da consulta agendada, os potenciais participantes eram contactados de forma presencial, pela investigadora responsável pela recolha dos dados, e sempre que possível, na companhia de uma pessoa do serviço. Nesse contacto inicial, a investigadora explicava os objetivos gerais do projeto e fornecia a ficha do consentimento informado, onde estavam explicitados o papel dos participantes no projeto, o cariz voluntário da participação, a garantia de confidencialidade e da utilização exclusiva dos dados para fins de investigação. Após o preenchimento do formulário de consentimento informado por parte de todos os pais (Fase II); ou por parte dos pais e crianças com idade \geq a 13 anos em conjunto, e do assentimento informado por parte das crianças com idades compreendidas entre os 8 e os 12 anos (Fase III), foram fornecidas instruções para o preenchimento do protocolo de avaliação. Para as crianças com idades compreendidas entre os 8 e os 12 anos, caso estas não manifestassem interesse na participação, mesmo que os pais tivessem dado autorização, a posição das crianças prevalecia. Era ainda referido à família que no caso de aceitarem integrar o projeto, o clínico responsável pelo acompanhamento da criança com epilepsia seria posteriormente contactado no sentido de facultar informação referente a dados clínicos.

Os participantes responderam aos questionários num formato de papel e lápis, num gabinete próprio dos serviços de consultas externas, e que havia sido disponibilizado pelas direções dos serviços para fins de investigação. O preenchimento era realizado na presença do investigador, que se disponibilizava a responder às dúvidas que surgissem aquando do preenchimento dos questionários. Na Fase II (amostra multicondições), uma vez que apenas os pais respondiam ao questionário, eram proporcionadas aos filhos atividades lúdicas adequadas ao respetivo nível etário de modo a garantir o mínimo de interferência no preenchimento dos questionários pelo pai/mãe respondente. Na Fase III (amostra específica na epilepsia), era solicitado aos pais e filhos que respondessem em simultâneo, mas de modo independente, aos respetivos protocolos de avaliação, cabendo ao investigador garantir que não trocavam entre si impressões no decurso do processo de preenchimento. Em cada um dos estudos quantitativos realizados, apenas um dos pais por família respondia aos questionários, aquele que se auto-

designava cuidador principal para as questões relacionadas com os cuidados de saúde adicionais ao seu filho/a com CCSP. Quando ambos os pais estavam presentes e consideravam que havia uma plena partilha das responsabilidades, era-lhes pedido para acordarem entre si qual seria o pai/mãe respondente.

Contrariamente à maioria dos estudos desenvolvidos na área da epilepsia pediátrica, onde é frequente o recurso ao hetero-relatos dos pais para recolher informação sobre crianças com epilepsia até à idade dos 12 anos, na Fase III do nosso projeto baseamo-nos nos auto-relatos das crianças com epilepsia. Esta opção metodológica foi consistente com recomendações atuais na investigação com crianças, de recurso a multi-informantes (Cummings, Davies, & Campbell, 2002), designadamente na área da epilepsia, onde as crianças são consideradas informantes incontornáveis e fiáveis em investigações que analisem os seus comportamentos, crenças, emoções, ambiente familiar ou QdV (Fayed et al., 2015). O facto de só termos incluído crianças com epilepsia com idade mínima de 8 anos (ponto de corte), é consistente com as recomendações patentes na literatura da especialidade (e.g., Ronen et al., 2003b) e já adotada em estudos anteriores (e.g., Ronen et al., 2010; Stevanovic, Jancic, & Lakic, 2011; Verhey et al., 2009).

Dada a elevada prevalência de dificuldades de aprendizagem específicas entre crianças com epilepsia, designadamente em crianças com quociente de inteligência (QI) dentro dos parâmetros da normalidade (QI >70) e com um percurso escolar regular, que de acordo com dados de estudos nacionais e internacionais se aproxima dos 50% dos casos (Lopes, Simões, et al., 2013; Oostrom et al., 2003), considerou-se importante questionar se as crianças estavam ou não capazes de proceder ao preenchimento autónomo do respetivo protocolo. Deste modo, quando na presença de dificuldades de compreensão reportadas pela própria criança ou família, ou verificadas informalmente *in loco* no momento da administração do protocolo de investigação, a investigadora responsável procedia à leitura guiada dos questionários, de modo a auxiliar e garantir a compreensão das questões. Este procedimento tem sido utilizado noutras investigações com crianças com epilepsia (e.g., M. L. Smith, Elliott, & Lach, 2004). Sublinha-se que todas as crianças que integraram a Fase III do nosso projeto eram alunos que seguiam o currículo escolar regular, ainda que nalguns casos estivessem sujeitos a medidas específicas da Educação especial (referência ao artigo 16º do D.L. 3/2008), por exemplo, adaptações no processo de avaliação ou apoio pedagógico personalizado.

Sempre que, por limitações temporais reportadas pela família, não fosse possível concluir o preenchimento integral dos questionários no local, era pedido às famílias para completarem em casa o respetivo preenchimento, sendo-lhes facultado um envelope selado de modo a remeterem os questionários para a investigadora por correio, sendo ainda concedido um

contacto telefónico ou de email no caso de terem alguma dúvida adicional no preenchimento ou nos procedimentos solicitados.

O critério temporal adotado (tempo mínimo de duração do diagnóstico de seis meses) para determinação da inclusão na Fase III do projeto baseou-se em dados de estudos longitudinais recentes relativos às trajetórias de mudança/manutenção das variáveis que integravam o nosso estudo (Loiselle et al., 2016; Rood, Schultz, Rausch, & Modi, 2014a), que sugerem que as alterações mais significativas ao nível de variáveis psicossociais como a QdVRS das crianças ou a sua perceção de estigma em relação à epilepsia (com base em auto ou hetero-relatos) tendem a acontecer até aos seis meses do pós-diagnóstico (Ramsey et al., 2016; Rood et al., 2014). Na Fase III do projeto foi ainda solicitado aos médicos neuropediatras assistentes o preenchimento de uma ficha de caracterização clínica da epilepsia, o mais brevemente possível após a realização do preenchimento dos questionários pela família.

No âmbito da recolha de amostra referente à Fase II foram recolhidos um total de 301 protocolos de avaliação (Quadro 2). Destes, 88 (29.2%) eram pais/cuidadores familiares de crianças com asma, 63 (20.9%) familiares de crianças com diabetes, 61 (20.3%) a familiares de crianças com epilepsia e 89 (29.6%) a familiares de crianças com obesidade. A taxa de participação nesta fase do estudo - entendida como a aceitação do convite para participação, por parte das famílias consideradas elegíveis na pré-seleção efetuada pelo médico/outro profissional de saúde de referência na instituição - foi de 94%. Aqueles que recusaram ($N= 18$) alegaram sobretudo questões de ordem temporal ou falta de interesse em participar. Uma vez que o protocolo de avaliação da Fase II integrava versões adaptadas para português de instrumentos de avaliação cujos estudos de adaptação para Portugal constituíam um dos objetivos da presente investigação, as versões portuguesas preliminares dos instrumentos foram apresentadas a um grupo composto por sete mães e um pai de crianças com condições crónicas de saúde (epilepsia, $n=3$; diabetes, $n=2$; asma/condição renal/condição cardíaca, $n=1$ /cada), recrutados por conveniência numa instituição educativa da região centro do país. Este procedimento visou questionar os pais acerca da compreensibilidade e clareza dos itens, e daqui resultaram pequenas alterações na formulação dos mesmos, tendo depois sido construídas as primeiras versões finais dos instrumentos. O estudo psicométrico da versão portuguesa do INCOM será apresentado no Capítulo III da presente tese.

No âmbito da recolha de amostra referente à Fase III foram recolhidos dados a um total de 221 díades (Ver Quadro 3) compostas por crianças e adolescentes com epilepsia e um dos seus pais. A taxa de aceitação de participação foi também bastante elevada, da ordem dos 95%. As razões referidas para não participação no projeto foram também questões de ordem temporal ou desinteresse na participação.

4 Variáveis e métodos de recolha de informação

De seguida será apresentada uma breve descrição dos questionários utilizados para avaliar as variáveis em estudo, e respetivas características psicométricas, parte integrante dos protocolos de avaliação correspondentes às Fase II e III do projeto. Algumas destas variáveis foram avaliadas apenas a partir dos relatos de um elemento da díade, outras foram avaliadas a partir dos relatos dos dois elementos (um dos pais e filho/a) do mesmo agregado familiar. O Quadro 4 apresenta as variáveis reportadas no presente projeto de investigação e os instrumentos selecionados para as avaliar, explicitando os estudos e fases da investigação em que são utilizados. Complementarmente, é ainda apresentado o

Quadro 5 onde constam os valores de alfa de Cronbach para cada subescala dos instrumentos utilizados nas Fases II e III do projeto de investigação. Variáveis sociodemográficas e clínicas.

4.1.1 Características sociodemográficas

A informação sociodemográfica dos participantes foi recolhida através de uma ficha de dados sociodemográficos e clínicos, construída especificamente para cada uma das fases de recolha de dados quantitativos (Fases II e III). Assim, nas Fases II (amostra multi-condições) e III (amostra específica na epilepsia pediátrica) os pais eram inquiridos sobre a idade, distrito de residência, estado civil, escolaridade, profissão e situação profissional (deles e do cônjuge ou companheiro), número de filhos e composição do agregado familiar; assim como sobre a idade, sexo e situação escolar do seu filho/a, e a existência de retenções escolares anteriores. Na ficha de dados sociodemográficos respeitante à Fase III os pais eram ainda questionados sobre se a criança com epilepsia beneficiava de alguma medida de educação especial no âmbito do previsto no D.L. 3/2008 que abrange alunos considerados com necessidades educativas especiais de carácter permanente; e, relativamente ao agregado, se beneficiavam de ação social escolar (escalão A ou B). O nível socioeconómico de cada agregado familiar foi classificado em três níveis - baixo, médio ou elevado - tendo por base os dados relativos à escolaridade e situação profissional de ambos os pais, exceto no caso de famílias monoparentais na sequência de separação ou divórcio, onde o pai/mãe ausente não contribuía com a devida pensão de alimentos, e seguindo as orientações de um sistema de classificação especificamente desenvolvido para o contexto Português (Simões, 1994).

Quadro 4 - Variáveis, instrumentos e informantes utilizados por estudo

| Variáveis | Método de recolha de informação | Informantes | | | Fase Investig. | | | Estudos empíricos | | | | | |
|---|---|-------------|---------|------|----------------|----|-----|-------------------|-----|----|---|----|--|
| | | Criança | Pai/mãe | Méd. | I | II | III | II | III | IV | V | VI | |
| Variáveis sociodemográficas e clínicas | | | | | | | | | | | | | |
| Caraterísticas sociodemográficas e clínicas | Ficha de dados sociodemográficos e clínicos | | ✓ | | | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | |
| Dados clínicos da epilepsia | Ficha de dados clínicos da epilepsia | | | ✓ | | ✓ | | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | |
| Gravidade da epilepsia | Global Assessment of Severity of Epilepsy [GASE] | | | ✓ | | ✓ | | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | |
| Variáveis familiares | | | | | | | | | | | | | |
| Coesão Familiar | Family Environment Scale [FES] | ✓ | ✓ | | | ✓ | ✓ | | ✓ | ✓ | | | |
| Gestão familiar das condições crónicas de saúde pediátricas | Family Management Measure [FaMM] | | ✓ | | | ✓ | ✓ | | ✓ | | | ✓ | |
| Significado dos rituais familiares | Family Rituals Questionnaire [FRQ] | | ✓ | | | | ✓ | | | | ✓ | | |
| Variáveis parentais | | | | | | | | | | | | | |
| Competência parental | Parenting Sense of Competence Scale [PSOC] | | ✓ | | | | | | | | ✓ | | |
| Variáveis individuais | | | | | | | | | | | | | |
| Perceção de estigma | Child Stigma Scale [CSS] | ✓ | | | | | | | | ✓ | | ✓ | |
| Perceção de estigma | Parent Stigma Scale [PSS] | | ✓ | | | | | | | ✓ | | | |
| Neuroticismo | Eysenck Personality Questionnaire [EPQ] | | ✓ | | | ✓ | | ✓ | | | | | |
| Orientação para a comparação social | Iowa-Netherlands Comparison Measure [INCOM] | | ✓ | | | ✓ | ✓ | ✓ | | | | ✓ | |
| Resultados de adaptação | | | | | | | | | | | | | |
| Qualidade vida relacionada com a saúde (QdVRS) | DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12, versão auto-relato] | ✓ | | | | | ✓ | | | ✓ | | ✓ | |
| | DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12, versão hetero-relato] | | ✓ | | | ✓ | | | ✓ | | | | |
| Qualidade de vida (QdV) | [EUROHIS-QOL-8] | | ✓ | | | | ✓ | | | ✓ | ✓ | | |
| Sintomatologia ansiosa e depressiva | Hospital Anxiety and Depression Scale [HADS] | | ✓ | | | ✓ | ✓ | ✓ | ✓ | | ✓ | | |

Quadro 5 - Valores de alfa de Cronbach para cada subescala dos instrumentos utilizados nas Fases II e III do projeto de investigação

| Instrumento | Subescala(s) utilizada(s) | Fase 2 N=301 α (n) | Fase 3 N=221 α (n) |
|---|--|---|---|
| Family Environment Scale [FES] –versão pai/mãe | Coesão familiar | .83 (301) | .80 (210) |
| Family Environment Scale [FES] –versão criança | Coesão familiar | - | .82 (212) |
| Family Management Measure [FaMM] | Vida diária da criança | .71 (301) | .73 (220) |
| | Capacidade de gestão da condição de saúde | .66 (301) | .66 (219) |
| | Esforço na gestão da condição de saúde | .58 (301) | .64 (220) |
| | Dificuldades na vida familiar | .88 (301) | .86 (219) |
| | Impacto da condição de saúde | .64 (301) | .64 (220) |
| | Mutualidade parental | .77 (256) | .79 (202) |
| | Parenting Sense of Competence Scale [PSOC] | Eficácia parental | - |
| Satisfação parental | | - | .73 (220) |
| Child Stigma Scale [CSS] | Escala total | - | .77 (214) |
| Parent Stigma Scale [PSS] | Escala total | - | .68 (221) |
| Eysenck Personality Questionnaire [EPQ] | Neuroticismo | .86 (301) | - |
| Iowa-Netherlands Comparison Measure [INCOM] | Escala total | .81 (301) | .81 (218) |
| DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12, versão hetero-relato] | Escala total | .87 (301) | - |
| DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12, versão auto-relato] | Escala total | - | .87 (213) |
| [EUROHIS-QOL-8] | Escala total | - | .83 (220) |
| Hospital Anxiety and Depression Scale [HADS] | Ansiedade | .81 (301) | .83 (221) |
| Hospital Anxiety and Depression Scale [HADS] | Depressão | .76 (301) | .76 (221) |

4.1.2 Variáveis clínicas

A recolha de dados clínicos atendeu à natureza específica de cada uma das fases do projeto. Na Fase II (amostra multicondições), os dados clínicos referentes à condição crónica de saúde da criança foram reportados pelos pais através da ficha de dados clínicos e sociodemográficos e incluíram: o tipo de diagnóstico (asma, diabetes, epilepsia ou obesidade), idade da criança na altura do diagnóstico, se existiam outras pessoas na família com CCSP. O tempo desde o diagnóstico foi calculado subtraindo a data do diagnóstico à data de nascimento da criança. Sempre que necessário, os dados clínicos eram depois revistos junto do médico assistente. Na Fase III do projeto, a recolha de dados clínicos referentes à criança com epilepsia teve por base dois informadores: os pais da criança com epilepsia e o médico neurologista pediátrico responsável pelo acompanhamento clínico da criança. Os pais eram inquiridos sobre o tipo de epilepsia, comorbilidades com outras condições crónicas de saúde física ou mentais que exigissem acompanhamento médico ou terapêutico regular para além da epilepsia; idade da criança na altura do(s) diagnóstico(s); serviços em que a criança era acompanhada para além das consultas regulares de neurologia pediátrica (e.g., terapia da fala, psicologia); se havia outras pessoas na família com epilepsia, e respetiva relação de parentesco com a criança; quem era/eram os responsável(eis) pela toma/supervisão da medicação antiepiléptica. Ao médico assistente era solicitado o preenchimento de uma ficha de dados clínicos da epilepsia, que incluía questões relativas ao tipo de crises epiléticas, tipo de epilepsia, etiologia, data e duração do diagnóstico, frequência das crises no presente, tipo de tratamento ministrado (sem tratamento, monoterapia, politerapia), tempo até ser conseguido o controlo clínico das crises, existência de comorbilidades com outras condições crónicas de saúde físicas ou mentais. A gravidade clínica da epilepsia foi avaliada por recurso à *Global Assessment of Severity of Epilepsy* (GASE, Speechley et al., 2008). Contrariamente a outras medidas focadas unicamente na gravidade das crises epiléticas (e.g., Carpay et al., 1997; Cramer et al., 2002; O'Donoghue, S., & Sander, 1996), esta medida permite a obtenção de indicador mais completo e compreensivo do impacto global da condição de saúde na vida do doente. Na GASE, o neurologista pediátrico responsável pelo acompanhamento da criança é solicitado a situar a gravidade global da epilepsia do seu doente numa escala que varia de 1 (*nada severa*) a 7 (*extremamente severa*), tendo por base a situação clínica do doente no presente (frequência das crises, medicação necessária, efeitos secundários associados), bem como o impacto da epilepsia nas suas atividades de vida diárias. Nos estudos psicométricos desenvolvidos até ao momento, a GASE tem revelado níveis adequados de acordo inter-avaliadores ($K = .85$ (95% CI: 0.79, 0.90)), validade de conteúdo e convergente, sendo reportadas associações significativas do índice global de gravidade da epilepsia com a frequência e intensidade das crises epiléticas e interferência das crises e/ou tratamento nas atividades de vida diária (Chan, Zou, Wiebe, & Speechley, 2015; Speechley et al., 2008). A GASE evidenciou

ainda sensibilidade para detetar alterações na gravidade da condição epiléptica da criança ao longo do tempo (Chan et al., 2015).

4.2 Variáveis familiares

4.2.1 Funcionamento familiar global no contexto geral

4.2.1.1 Coesão familiar

Para avaliar as perceções da coesão familiar por parte das crianças e pais recorreu-se à subescala Coesão da dimensão *Relação* da *Family Environment Scale* (FES, Moos & Moos, 1986; versão portuguesa: Matos & Fontaine, 1992). A FES integra 10 subescalas, cada uma composta por 9 itens e organizadas em três dimensões: Relação, Crescimento pessoal e Manutenção do sistema. A FES é considerada uma medida apropriada do funcionamento familiar no contexto da psicologia pediátrica (Alderfer et al., 2008) e tem sido amplamente utilizada em estudos com famílias com filhos com CCSP (e.g., Kronenberger & Thompson, 1990). Em face de existirem evidências contraditórias na literatura relativamente às propriedades psicométricas das várias subescalas da FES, alguns investigadores têm recomendado a utilização de dimensões ou subescalas específicas com evidência de maior robustez psicométrica (Hamilton & Carr, 2016; Sanford, Bingham, & Zucker, 1999).

A subescala Coesão familiar avalia as perceções dos membros da família relativamente ao grau de envolvimento, compromisso, entreaajuda e apoio que os membros da família prestam uns aos outros (Moos & Moos, 1986), sendo composta por nove itens (e.g., *Temos muito tempo e atenção uns para os outros; Na minha família ajudamo-nos uns aos outros*). Os participantes respondem numa escala tipo *Likert* de 6-pontos, que varia de 1 (*discordo totalmente*) a 6 (*concordo totalmente*). A pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, depois de invertidas as pontuações dos três itens formulados na negativa. Pontuações mais elevadas indicam níveis superiores de coesão familiar. A adequada fiabilidade e validade desta subescala foi atestada nos estudos originais de desenvolvimento da FES (alfa de Cronbach= .78). Nos estudos originais de adaptação da versão portuguesa da FES, realizada numa amostra de adultos, a subescala coesão apresentou valores de alfa de Cronbach de .87 (Matos & Fontaine, 1992). Estudos posteriores com amostras de pais e crianças e adolescentes com CCSP em Portugal tem revelado valores adequados de consistência interna para esta subescala, superiores a .70 (e.g., Moreira, Frontini, et al., 2013; S. Santos et al., 2015).

4.2.1.2 Significado dos rituais familiares

O significado dos rituais familiares de crianças e de pais foi avaliado através da versão portuguesa do *Family Ritual Questionnaire* (FRQ, Fiese & Kline, 1993; versão portuguesa: Crespo, Davide, Costa & Fletcher, 2008). Na sua versão integral, o questionário FRQ avalia rituais

familiares em sete contextos distintos: hora de jantar, fins de semana, férias, feriados religiosos, tradições étnicas e culturais, comemorações anuais e celebrações especiais. Análises fatoriais prévias com o FRQ puseram em evidência dois fatores, originalmente designados de *Significado* e *Rotinas*, sendo que o primeiro tem sido considerado o mais robusto e utilizado preferencialmente na investigação sobre rituais familiares. O fator *Significado* refere-se às percepções da família em torno do investimento nos rituais. Entre outras coisas, os elementos da família são questionados sobre com que frequência estão envolvidos nestes rituais familiares, se é suposto todos estarem presentes, que importância têm para eles a realização destes eventos, se planeiam com antecedência a sua realização. Atendendo aos nossos interesses de investigação e à extensão da escala, na presente investigação foram utilizados apenas os cinco itens correspondentes ao fator *Significado* atribuído aos rituais, em dois contextos familiares de relevo: a hora de jantar e as comemorações anuais (total de 10 itens).

A resposta ao questionário envolve um formato de escolha forçada, composta por dois passos. Para cada um dos 10 itens utilizados é apresentado um par de descrições e num primeiro momento os participantes têm de escolher qual das duas descrições melhor representa a sua família e a forma como habitualmente funciona, por exemplo: *Em algumas famílias é esperado que todos estejam presentes na comemoração*, em oposição a: *Em outras famílias pode ser uma altura em que nem todos estão presentes*. Num segundo momentos os participantes têm de indicar se a descrição escolhida é total ou parcialmente verdadeira. As quatro combinações de respostas possíveis correspondem a uma escala tipo-Likert, que varia de 1 a 4, e em que valores mais elevados indicam maior investimento da família nos rituais familiares. O resultado total para cada contexto ou conjunto de contextos é calculado tendo por base a média das pontuações aos vários itens.

Estudos com diversas populações demonstram que este instrumento apresenta características psicométricas adequadas, tanto ao nível da consistência interna, teste-reteste, como validade de construto (Fiese & Kline, 1993; Fiese et al., 2002). Nos estudos da versão original, os valores de consistência interna tendo por base o alfa de Cronbach, para os contextos hora de jantar e comemorações anuais foram respetivamente .84 e .73. Em Portugal, os estudos realizados com a versão portuguesa da escala, tanto em amostras da população adulta (Crespo, Davide, Costa, & Fletcher, 2008), como em amostras de crianças e adolescentes e seus pais (S. Santos et al., 2012), confirmam a adequação das características psicométricas do instrumento.

4.2.2 Funcionamento familiar global no contexto de CCSP

4.2.2.1 Gestão familiar da condição crónica de saúde

Para avaliar a gestão familiar no contexto de condições crónicas de saúde percebida pelos pais optámos pela utilização da *Family Management Measure* (FaMM, Knafel et al., 2011).

Contrariamente a outras medidas do funcionamento familiar que avaliam dimensões e processos familiares globais gerais (e.g., FES), ou a medidas específicas de gestão familiar no contexto de uma condição de saúde específica (e.g., McQuaid et al., 2005), a FaMM é uma medida genérica, aplicável transversalmente nas várias condições crónicas de saúde pediátricas. Partindo de uma perspetiva não-categorial do impacto das CCSP (Stein & Jessop, 1982), a FaMM avalia as perceções parentais das áreas de força e dificuldade relacionadas com gestão quotidiana da condição crónica de saúde e com a incorporação do respetivo tratamento no quotidiano familiar (Knafl et al., 2011; Knafl et al., 2013).

A versão integral da FaMM integra seis escalas, repartidas por 53 itens, 45 dos quais dirigidos a todos os pais (*Vida diária da criança; Capacidade de gestão da condição de saúde; Esforço na gestão da condição de saúde; Dificuldades na vida familiar; Impacto da condição de saúde*), e oito itens adicionais (referentes à escala *Mutualidade parental*) dirigidos exclusivamente a pais que vivam com um companheiro ou cônjuge com quem partilham responsabilidades parentais da criança. Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert de 5 pontos, variando de 1 (*discordo muito*) a 5 (*concordo muito*). As escalas são passíveis de ser aplicadas de forma conjunta ou isolada. Para cada escala é calculado uma média tendo por base as cotações nos vários itens que a integram.

Os estudos originais das propriedades psicométricos da FaMM mostraram níveis e valores da estabilidade temporal (teste-reteste), validade de construto e consistência interna globalmente adequados (Knafl et al., 2011). A FaMM tem sido adaptada e utilizada em diferentes contextos culturais (e.g., Hutton, Munt, Aylmer, & Deatrck, 2012; Zhang, Wei, Han, & Shen, 2013). Não existindo uma versão Portuguesa da FaMM, o processo de tradução do instrumento foi desenvolvido no âmbito do presente projeto e seguiu as recomendações internacionais para o efeito (Hambleton et al., 2004). Apesar dos estudos de validação transcultural da versão Portuguesa da FaMM não estarem ainda concluídos, os estudos preliminares das propriedades psicométricas do instrumento numa amostra de crianças com CCSP várias (asma, diabetes, epilepsia e obesidade) sugerem bons resultados de validade e fidedignidade de três das seis subescalas que compõem a versão original do instrumento, mais concretamente *Vida diária da criança, Dificuldades na vida familiar e Mutualidade parental* (Mendes & Crespo, 2018, jan) e que por isso foram as utilizadas na presente investigação (ver Quadro 5).

A escala *Vida diária da criança* é composta por cinco itens (e.g., *O dia a dia do nosso filho é semelhante à de outras crianças da mesma idade*) que avaliam o grau em que a perspetiva dos pais sobre a vida do seu filho/a com CCSOP se foca na doença e/ou vulnerabilidades daí decorrentes ou ao invés, na normalidade e capacidades da criança. Valores mais elevados indicam que os pais se centram na normalidade da vida do seu filho/a, apesar da sua CCSP.

A escala *Dificuldades na vida familiar* é composta por 14 itens (e.g., *É como se a condição de saúde do nosso filho controlasse as relações familiares*). Esta escala avalia as percepções dos pais em torno do grau em a gestão da CCSP torna a vida familiar mais difícil. Valores mais elevados nesta escala indicam uma vida familiar mais centrada nos esforços e nos cuidados ligados à CCSP, cuja gestão é vista como globalmente difícil.

A *Mutualidade parental* é uma escala composta por oito itens (e.g., *Eu e o meu companheiro temos ideias diferentes em relação à gravidade da condição de saúde do nosso filho*). Esta escala avalia o grau em que cônjuges/ companheiros têm uma visão partilhada sobre a situação de saúde do seu filho/a, se apoiam mutuamente na gestão da mesma e se sentem satisfeitos na forma como trabalham em conjunto e se articulam para lidar com a CCSP. Valores mais elevados indicam uma maior satisfação em relação ao apoio mútuo e à forma como os dois elementos do casal trabalham em conjunto na gestão da CCSP do seu filho/a.

4.3 Variáveis parentais

4.3.1 Competência parental

A competência parental foi avaliada através da versão Portuguesa do *Parenting Sense of Competence* (PSOC, Gibaud-Wallston & Wandersman 1978, cit. por Johnston & Mash, 1989, versão portuguesa: Seabra-Santos et al., 2015), designada no contexto português por *Escala de Sentido de Competência Parental*. A competência parental constituiu um dos preditores mais relevantes da qualidade do desenvolvimento infantil e da qualidade do ajustamento emocional nos pais em particular (Gilmore & Cuskelly, 2009). A decisão de integrar uma escala para avaliar a competência parental prendeu-se com o facto de, apesar do reconhecimento geral de que a ocorrência de uma CCSP como a epilepsia constituir um fator de risco acrescido para práticas parentais desajustadas (Pinquart, 2013) e da competência parental constituir uma determinante central de práticas educativas eficazes (Dumka et al., 2010), esta constituiu uma área praticamente inexplorada na investigação psicossocial na epilepsia pediátrica.

Na PSOC é pedido aos pais que na resposta ao questionário tomem em consideração a sua experiência global enquanto pais, sem se focarem numa tarefa parental específica (por exemplo, tomar conta de uma criança doente ou ajudar uma criança a fazer o treino do bácio) ou num domínio particular da parentalidade (disciplina, afeto ou supervisão) (T. L. Jones & Prinz, 2005). O PSOC integra duas subescalas. A subescala *Satisfação* inclui nove itens que avaliam uma dimensão mais afetiva da parentalidade, mais concretamente, o grau em que o pai/mãe se sente confortável e motivado no papel parental (e.g., *Ser mãe/pai faz-me sentir tensa/o e ansiosa/o* – item formulado na negativa). A subescala *Eficácia* inclui sete itens que avaliam a dimensão instrumental da parentalidade, designadamente, até que ponto é que o pai/mãe se sente competente, confortável com o papel de pai/mãe e capaz de resolver problemas (e.g., *Se há alguém que*

consegue perceber o que perturba o meu filho/a, essa pessoa sou eu). Em cada item é solicitado aos pais para indicarem o grau de concordância com a afirmação apresentada, numa escala de 5 pontos (1=*discordo plenamente*; 5=*concordo plenamente*). Nove dos dezassete itens têm cotação invertida. Para cada uma das subescalas foram somadas as pontuações dos itens individuais e calculada a respetiva média. Quanto mais elevada for a pontuação, maior o sentido de satisfação/eficácia.

A PSOC constitui o instrumento mais utilizado a nível internacional para avaliar o sentido de competência parental (T. L. Jones & Prinz, 2005), com utilizações em múltiplos países ocidentais e orientais (e.g., Carvalho-Homem, 2014 ; Gilmore & Cuskelly, 2009; Ngai, Wai-Chi, & Holroyd, 2007), sendo amplamente utilizado tanto para fins de investigação como clínicos, designadamente na avaliação da eficácia de programas de intervenção na parentalidade. Apesar dos estudos da versão original da escala terem sido realizados com uma amostra de crianças entre o 4 e os 9 anos, a PSOC tem sido utilizado com amostras de pais com filhos mais velhos, designadamente com pais de adolescentes (e.g., Gilmore & Cuskelly, 2009). Na generalidade, os estudos empíricos realizados com a versão original do instrumento têm apontado para resultados satisfatórios de consistência interna e validade de construto, convergente e discriminante (Gilmore & Cuskelly, 2009; Johnston & Mash, 1989). Especificamente relativamente à consistência interna, no estudo da versão original do instrumento a PSOC evidenciou níveis aceitáveis de consistência interna em cada uma das subescalas - *Satisfação* (alfa de Cronbach= .75); *Eficácia* (alfa de Cronbach= .76) (Johnston & Mash, 1989). Os estudos originais de validação da versão portuguesa da PSOC foram realizados com uma amostra clínica de pais com filhos com idades compreendidas entre os 3 e os 6 anos (Seabra-Santos et al., 2015). Nesse estudo, as subescalas da PSOC apresentaram níveis de consistência interna satisfatórios (*Satisfação*: $\alpha=.75$; *Eficácia*: $\alpha=.72$) e os resultados da análise fatorial confirmatória apoiaram uma estrutura fatorial bidimensional da medida (e.g., Gilmore & Cuskelly, 2009; Seabra-Santos et al., 2015).

4.4 Variáveis individuais

4.4.1 Perceção de estigma (versões criança e pais)

Para avaliar a perceção de estigma em relação à epilepsia, utilizaram-se as versões para crianças e para pais das escalas desenvolvidas por Austin e colegas (2004), consideradas medidas breves, válidas e fiáveis.

A versão para crianças, a *Child Stigma Scale* é uma escala composta por oito itens, onde é solicitado à criança com epilepsia que indique a frequência com que se sente diferente, envergonhada por ter epilepsia ou até que ponto tenta esconder das outras pessoas o facto de ter esta doença (Austin et al, 2004). Constituem exemplos de itens: *Quantas vezes sentes que as*

outras pessoas poderão não gostar de ti se souberem que tens epilepsia?; Quantas vezes escondes das outras crianças que tens epilepsia? Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert de 5 pontos, que varia entre 1 (*nunca*) a 5 (*quase sempre*). É calculada uma média das cotações individuais dos itens, com valores mais elevados a indicarem níveis superiores de estigma percebido. Os estudos da versão original da *Child Stigma Scale* (CSS) indicaram níveis adequados de consistência interna (alfa de Cronbach=.81), bem como de validade de construto, evidente nas associações significativas com medidas de severidade das crises e níveis inferiores de saúde mental. Apesar dos estudos da versão original terem sido conduzidos com uma amostra de crianças com uma amplitude etária dos 9 aos 14 anos, esta escala tem sido utilizada em estudos com amostras de adolescentes com amplitudes etárias mais extensas e em diferentes países (e.g., A. Benson et al., 2016; Rood et al., 2014b).

A versão para pais, a *Parent Stigma Scale* (PSS), trata-se de uma escala composta por 5 itens (e.g., *As pessoas que sabem que o meu filho/a tem epilepsia, tratam-no de modo diferente*), que avalia as crenças dos pais de crianças com epilepsia relativamente ao grau em que acreditam que os seus filhos estejam ou possam vir a ser alvo de estigma pela circunstância do seu problema de saúde. Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert de 5 pontos, que varia entre 1 (*discordo muito*) a 5 (*concordo muito*). À semelhança do que acontece na versão para crianças, na versão para pais as pontuações dos itens individuais são somadas e divididas pelo número total de itens de modo a obter-se uma pontuação média da escala. Nos estudos da versão original da *Parent Stigma Scale* foram utilizadas duas amostras: uma, de pais de crianças com epilepsia cujo diagnóstico fora estabelecido nas últimas seis semanas e outra, de pais de crianças com epilepsia com uma duração média de diagnóstico de aproximadamente cinco anos. Em ambas as amostras, diagnóstico recente e doentes crónicos, a escala apresentou níveis adequados de consistência interna (*αs* .79 e .77, respetivamente), bem como evidências empíricas em apoio da unidimensionalidade da escala e da validade de construto, com associações significativas com medidas de preocupação parental.

Nos estudos da versão original, as associações entre a escala para pais e para filhos revelaram-se significativas e de magnitude moderada ($r = .30$).

4.4.2 Orientação para a comparação social

A orientação para a comparação social dos pais foi avaliada através da *Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure* (INCOM, Gibbons & Buunk, 1999). Os estudos psicométricos de adaptação da versão Portuguesa da INCOM foram desenvolvidos no âmbito do presente projeto, após termos obtido autorização formal de um dos autores da versão original da escala para a respetiva tradução e adaptação para Portugal, e são detalhados na Seção II e no Capítulo 3 da presente dissertação.

A versão original da INCOM integra 11 itens que visam avaliar os hábitos individuais de comparação social com os outros (e.g., *Muitas vezes comparo a forma como estão as pessoas que me são próximas (cônjuge/companheiro, filhos), com as dos outros; Muitas vezes procuro saber aquilo que outros que enfrentam problemas semelhantes aos meus, pensam*). Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert de 5 pontos, variando de 1 (*discordo muito*) a 5 (*concordo muito*). Quanto mais elevada a pontuação obtida, maior a tendência para a pessoa se comparar com outras e ser influenciada por essas comparações. Pessoas com maior orientação para a comparação social tendem a reportar elevada auto-consciência social, interesse elevado no que os outros pensam e sentem, bem como um grau elevado de afetividade negativa e de incerteza em relação ao self (Gibbons & Buunk, 1999).

A INCOM tem sido utilizada em diferentes contextos culturais (e.g., Espanha, Alemanha, China, Coreia) e em diferentes áreas, designadamente na organizacional, educacional e na saúde (Buunk, Belmonte, Peiró, Zurriaga, & Gibbons, 2005; Buunk & Gibbons, 2007). Nos estudos de validação da versão original da INCOM, desenvolvidos em simultâneo na Holanda e nos Estados Unidos da América, a escala evidenciou características psicométricas satisfatórias, mais concretamente valores adequados de estabilidade teste-reteste; consistência interna – com valores de alfa de Cronbach a variar entre .78 e .85; e de validade convergente, com associações significativas baixas a moderadas com medidas de psicopatologia e neuroticismo (Gibbons & Buunk, 1999; Schneider & Schupp, 2014).

4.4.3 Neuroticismo

O neuroticismo dos pais foi avaliado através da subescala de Neuroticismo do *Eysenck Personality Questionnaire* (EPQ, Eysenck & Eysenck, 1975; versão portuguesa: Castro-Fonseca, Eysenck & Simões, 1991). O EPQ avalia as três dimensões fundamentais da personalidade – o psicoticismo, a extroversão e o neuroticismo – e contém uma escala de continuum que varia entre a personalidade neurótica (ou instável) – englobando traços como a emotividade, ansiedade, depressão, hiper-preocupação, irritabilidade fácil, entre outros – e a personalidade estável – que se caracteriza por traços como a serenidade, o controlo, a boa disposição, entre outros. A subescala Neuroticismo é composta por 18 itens (e.g., *Acha que é uma pessoa nervosa?; Sente-se frequentemente perturbado/a e com sentimentos de culpa?*) na qual a pessoa terá de responder numa escala de formato dicotómico (*sim/não*). No estudo da versão portuguesa desenvolvido em 1991 por Castro Fonseca e colegas, a subescala *Neuroticismo* apresentou propriedades psicométricas adequadas. Uma nova versão da escala foi recentemente alvo de trabalho de adaptação e análise das respetivas qualidades psicométricas (Almiro & Simões, 2014).

4.5 Indicadores de adaptação individual

4.5.1 Indicadores de adaptação individual de pais

4.5.1.1 *Sintomas ansiosos e depressivos*

Os sintomas psicopatológicos de ansiedade e depressão dos pais foram avaliados através da versão portuguesa da *Hospital Anxiety and Depression Scale* (HADS, Zigmond & Snaith, 1983; versão portuguesa: Pais-Ribeiro et al., 2007). A HADS é um questionário breve originalmente desenvolvido para avaliar níveis de ansiedade e depressão em doentes com patologia física e em tratamento ambulatorio, mas que na atualidade é largamente utilizado na investigação e prática clínica para avaliar populações não-psiquiátricas (Herrmann, 1997). A HADS é composta por duas subescalas, cada uma delas composta por sete itens: a subescala *Ansiedade* (e.g., *Sinto-me de tal forma inquieto/a que não consigo estar parado/a*) e a subescala *Depressão* (e.g., *Sinto-me mais lento/a, como se fizesse as coisas mais devagar*). Para cada item existem quatro possibilidades de resposta, devendo a pessoa escolher aquela que se adequa à forma como se tem sentido durante a última semana. O conteúdo da subescala *Ansiedade* centra-se nos medos de pânico e ansiedade generalizada. A subescala *Depressão* foi construída baseada no conceito de anedonia, excluindo itens relacionados com as componentes cognitivas da depressão (desesperança; baixa autoestima; ideação suicida). As pontuações nos itens variam de 0 (*nunca/quase nada/de modo algum*) a 3 (*a maior parte do tempo/muitas vezes/completamente*). Os resultados totais de cada subescala variam de 0 a 21 pontos, resultantes da soma dos valores individuais dos itens de cada subescala. Valores mais elevados indicam níveis elevados de ansiedade e depressão. Pontuações entre 8 e 10 pontos numa subescala poderão indicar uma possível perturbação clínica, e entre 11 e 21, uma provável perturbação clínica. A gravidade dos sintomas ansiosos e da depressivos podem ser classificadas como *normal* (0-7), *leve* (8-10), *moderada* (11-15) ou *severa* (16-21) (Snaith & Zigmond, 1994).

A HADS é reconhecida como um instrumento fiável e válido, existindo um corpo amplo de investigação a nível internacional a atestar as suas boas qualidades psicométricas e a respetiva utilidade enquanto instrumento de rastreio de psicopatologia emocional em contextos de saúde, com doentes que frequentam os serviços (Herrmann, 1997). Os coeficientes alfa de Cronbach para as duas subescalas da HADS no estudo de Smith e colaboradores (2002), foram respetivamente de .83 para a *Ansiedade* e .79 para a *Depressão*. Estudos de fiabilidade teste-reteste da HADS passadas três semanas demonstraram valores adequados tanto para a subescala *Ansiedade* (.89), como para a subescala *Depressão* (.86) (Spinoven et al., 1997). Nos estudos de adaptação da versão Portuguesa da HADS realizados com uma amostra de adultos com diversas condições crónicas de saúde e com uma amostra da população saudável, a estrutura bidimensional da HADS foi replicada, e cada uma das subescalas revelou níveis de consistência

interna adequados, mais concretamente foram obtidos valores de alfa de Cronbach de .76 para a subescala *Ansiedade* e de .81 para a subescala *Depressão* (Pais-Ribeiro et al., 2007).

4.5.1.2 *Qualidade de vida*

A qualidade de vida (QdV) dos pais foi avaliada através da versão portuguesa do EUROHIS-QOL-8 (Schmidt, Muhlan, & Power, 2006; versão portuguesa: Pereira, Melo, Gameiro, & Canavarro, 2011). O EUROHIS-QOL-8 foi desenvolvida a partir dos instrumentos genéricos de avaliação de QdV, o WHOQOL-100 e o WHOQOL-BREF (Power, 2003; Schmidt, Muhlan, et al., 2006), instrumentos constituídos por 100 e 26 itens, respetivamente. O EUROHIS-QOL-8 é uma medida mais breve, composta por oito itens, proporcionando um índice geral de QdV. O EUROHIS-QOL-8 integra quatro domínios de QdV - físico, psicológico, relações sociais e ambiente; sendo cada domínio representado por 2 itens (e.g., *Até que ponto está satisfeito/a com a sua capacidade para desempenhar as atividades do seu dia-a-dia?*). Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert decinco pontos que variam entre 1 (*nunca/nada satisfeito*) a 5 (*completamente/muito satisfeito*), e tendo como referencial temporal as duas últimas semanas. O resultado final corresponde à média das pontuações nos oito itens, sendo que valores mais elevados correspondem a uma melhor perceção da QdV.

O estudo transcultural das propriedades psicométricas do EUROHIS-QOL-8 integrou dez países europeus e perto de cinco milhares de participantes (Schmidt, Muhlan, et al., 2006). Os resultados puseram em evidência bons indicadores de consistência interna (com valores de alfa de Cronbach a variaram entre .74 e .85, no conjunto das amostras nacionais); validade convergente com medidas de saúde física e mental e apoio à estrutura unidimensional do questionário. Nos estudos da adaptação da versão portuguesa, o EUROHIS-QOL-8 apresentou valores adequados de consistência interna (alfa de Cronbach de .83), estabilidade temporal e indicadores satisfatórios de validades de construto, discriminante e convergente (Pereira et al., 2011).

4.5.2 **Indicadores de adaptação individual de crianças**

4.5.2.1 *Qualidade de vida relacionada com a saúde genérica (QdVRS) (versões auto e hetero-relato)*

Atualmente encontram-se disponíveis na literatura internacional uma grande diversidade de instrumentos para avaliar a QdVRS das crianças, que vão desde as medidas gerais de QdVRS aplicáveis à população geral e à população com CCSP, e de que são exemplo o PedsQL TM 4.0 *generic core scales* (Varni, Seid, & Kurtin, 2001); medidas genéricas aplicáveis transversalmente às várias condições crónicas de saúde pediátricas, de que são exemplo o DISABKIDS *chronic generic module* (Bullinger, Schmidt, Petersen, & Group, 2002; Schmidt, Debensason, et al., 2006). Existem também medidas específicas de avaliação da QdVRS para a epilepsia pediátrica como o *Quality of life in childhood epilepsy questionnaire* (QOLICE), medida de hetero-relato para pais de crianças

com epilepsia dos 4 aos 18 anos (Sabaz et al., 2003) ou o Quality of life in epilepsy for adolescents (QOLIE-AD-48), medida de auto-relato para crianças a partir dos 11 anos (Cramer et al., 1999). Alguns dos instrumentos referidos são de aplicação demorada. Em Portugal não existem instrumentos de avaliação da QdVRS específicos para a epilepsia pediátrica. Por isso, na presente investigação, optámos por avaliar a QdVRS das crianças com epilepsia através da versão portuguesa da Disabkids Chronic Generic Measure –short form (DCGM-12) (Schmidt, Debensason, et al., 2006; versão portuguesa: Carona et al., 2013). A DCGM-12 constitui uma versão abreviada do DCGM-37, focando-se especificamente no conceito de QdVRS e visa avaliar o impacto percebido de uma condição crónica de saúde pediátrica, bem como do respetivo tratamento, nos três grandes domínios de vida da criança: físico, mental e social (Schmidt, Debensason, et al., 2006).

No presente projeto de investigação foram utilizadas as versões hetero-relato (Fase II), a ser respondida por pais de crianças com CCSP, e onde lhes é solicitado que avaliem a QdVRS do seu filho/a com CCSP tendo por base a perspetiva da criança e não a sua própria perspetiva; e auto-relato (Fase III), aplicável a crianças dos 8 aos 18, e. Tratam-se de versões paralelas, cada uma composta por 12 itens (versão hetero-relato: *O problema de saúde do seu filho faz com que ele se sinta triste?; O seu filho sente-se igual às outras pessoas apesar do problema de saúde dele?;* versão auto-relato: *Sente-te infeliz por causa do teu problema de saúde; sentes-te igual às outras pessoas apesar do teu problema de saúde?*). Os itens são respondidos numa escala tipo-Likert que varia entre 1 (*nunca*) e 5 (*sempre*), tendo como referência temporal as últimas quatro semanas. No sentido de generalizar a aplicação do instrumento a todas as crianças com CCSP, independentemente de estarem ou não a ser alvo de tratamento médico, no presente, e seguindo as recomendações de Muehlan (2010) para o efeito, foram excluídas as pontuações relativas aos dois itens referentes ao tratamento e medicação. Deste modo, no presente estudo, a pontuação final resultou da média das pontuações nos 10 primeiros itens. Resultados mais elevados indicam melhor QdVRS da criança, tal como percebido pela própria (versão auto-relato) ou pelo seu cuidador familiar/pai ou mãe (versão hetero-relato).

Os estudos originais em torno das qualidades psicométricas do DCGM-10 dão conta da robustez psicométrica do instrumento, designadamente ao nível da consistência interna, com valores de alfa de Cronbach de .84 e .86 nas versões auto e hetero-relato do instrumento, respetivamente (Schmidt, Debensason, et al., 2006). A concordância entre as versões auto e hetero-relato tendo por base o coeficiente de correlação de Pearson (r) e o coeficiente de correlação intra-classes (ICC), dão conta de elevada convergência ($r = .82$; $ICC = .82$). Nos estudos da versão portuguesa foram reportados valores de alfa de Cronbach de .83 e .90, nas versões auto e hetero-relato do instrumento, respetivamente, tendo sido ainda atestada a aplicabilidade do instrumento em diferentes grupos etários (crianças vs. adolescentes); sexo das

crianças (raparigas vs. rapazes) e tipo de informantes (crianças vs. pais) (Carona et al., 2013). Apesar dos autores do DCGM-12 recomendarem, sempre que possível, a utilização simultânea das duas versões (auto e hetero-relato), uma vez que cada uma delas é passível de fornecer informação complementar e igualmente válida, no nosso estudo cada uma das versões foi utilizada separadamente da outra. Esta opção metodológica visou atender quer às características da amostra em diferentes etapas do estudo, bem como a restrições impostas pela extensão da bateria de questionários a aplicar. Atendendo a que no Estudo III a amostra integrava pais de crianças com idade inferior a 8 anos, incapazes de responder ao questionário, optámos pela utilização da versão hetero-relato. Nos Estudos IV e VI, uma vez que só integrava crianças a partir dos 8 anos, optámos pela utilização da versão auto-relato.

5 Considerações éticas

A preparação e implementação do nosso projeto de investigação teve em consideração os princípios e recomendações éticas relativas à condução de investigação científica com seres humanos estabelecidos pelo *Committee on Human Research* da APA (American Psychological Association, 2013, 2016), pela Declaração de Helsínquia (WMA, 2013) e pelo *Código Deontológico* da Ordem dos Psicólogos Portugueses (OPP, 2011). Assim, reconhece-se a importância da realização da investigação com participantes humanos, pelos avanços no conhecimento científico que pode proporcionar, mas considera-se fundamental que toda e qualquer investigação conduzida salvguarde o bem-estar dos participantes, acima e além de qualquer outro interesse ou objetivo, em conformidade com o consignado no *princípio geral da beneficência e não-maleficência*. Deste modo, os investigadores, para além de se focarem nas questões científicas que consideram pertinentes, devem considerar como prioritárias a proteção da saúde, privacidade, confidencialidade e dignidade dos participantes. Para além disso, os investigadores devem atender aos *princípios gerais da integridade, competência e da responsabilidade social* no sentido da produção e da comunicação de conhecimento científico válido, honesto e suscetível de melhorar o bem-estar das pessoas. Atendendo ao facto desta investigação integrar população pediátrica, tida como um grupo de vulnerabilidade acrescida, pelas limitações ao nível da autodeterminação inerentes ao fator idade, as preocupações éticas assumiram uma relevância acrescida.

Deste modo, no momento de concetualização do projeto de investigação refletimos acerca da relevância dos objetivos da presente investigação, desenho metodológico e dos eventuais riscos e benefícios em que os participantes poderiam incorrer. Esta reflexão apoiou-se numa ampla revisão de literatura e o debate de ideias envolveu os elementos da investigação, profissionais a trabalhar na área da epilepsia pediátrica, bem como outros agentes no contexto académico. Este projeto foi alvo de discussão com investigadores no âmbito do programa inter-universitário de doutoramento, especialidade Psicologia Clínica – área temática: Psicologia da Família e Intervenção Familiar, com especialistas na área da análise e tratamento de dados e com os autores das versões originais dos instrumentos de avaliação que pretendíamos adaptar para o contexto Português. Desta reflexão surgiram implicações várias, designadamente ao nível do canal a privilegiar no contacto com os doentes (natural/escolar vs. hospitalar); da forma como o contacto com as famílias poderia ser estabelecido (i.e., no próprio dia da vinda à consulta de especialidade previamente agendada, de modo a não sobrecarregar as famílias e evitar gastos adicionais); da articulação com as equipas de saúde para a pré-seleção dos participantes; da informação a constar no consentimento informado, no sentido de maximizar a participação informada, entre outros aspetos. O debate orientou ainda escolhas relativas ao tipo e número de questionários, restringindo-os ao estritamente necessário no sentido de cumprir os objetivos

de investigação, e evitar uma sobrecarga desnecessária decorrente da participação, com recolha de informação supérflua ou redundante. Este dado é tão mais relevante pelo facto destas famílias serem, já de si, muito sobrecarregadas com um conjunto de tarefas diversificado. Atendendo ao atrás exposto, optámos, sempre que possível, pelas versões breves dos questionários e estivemos atentos se a formulação dos questionários, nas suas versões para crianças, era adequada para o respetivo nível de compreensão. Depois de integradas e recolhidas as diferentes sugestões decorrentes deste processo de reflexão, submetemos o projeto de investigação e respetivos protocolos de avaliação, à consideração e aprovação dos Conselhos de Administração e/ou Comissões de Ética das Instituições Hospitalares onde decorreu a investigação (CHUC-EPE; CHLP-EPE; HGO-EPE e HDS-EPE).

Depois de obtidas as devidas autorizações, demos início à implementação do projeto. No decurso do processo de recolha de amostra, e no contacto com os potenciais participantes para integração na investigação, tivemos em consideração diferentes recomendações éticas: sempre que possível, o primeiro contacto com as famílias era efetuado pelo elemento de ligação da equipa de profissionais de saúde onde a criança se dirigia para ter consulta de especialidade, que lhes fornecia uma breve apresentação do projeto e os apresentava à investigadora; no contacto inicial com as famílias, a investigadora informava os potenciais participantes do objetivo geral e do papel dos participantes (preenchimento de um questionário de auto-resposta, com uma duração estimada de 30 a 45 minutos, num único momento). Os potenciais participantes eram também informados da natureza voluntária da participação, ou seja, a não participação ou a desistência em qualquer fase do projeto não teria qualquer implicação no processo de acompanhamento médico/terapêutico que lhes era proporcionado no serviço; dos riscos e benefícios potenciais decorrentes da participação, designadamente esclarecer que este estudo poderia não resultar em benefício direto para qualquer um dos elementos da família, mas que a sua participação e da sua família, poderiam ajudar a compreender melhor a diversidade de formas com que as famílias se adaptam no contexto da epilepsia pediátrica e à identificação dos fatores que facilitam e/ou comprometem tal adaptação; ou da inexistência de custos adicionais com a participação, em termos de deslocações. No sentido de poderem tomar uma decisão informada quanto à sua participação, aos potenciais participantes era ainda dada a garantia de confidencialidade dos dados fornecidos, pela disponibilização de informação prévia ao consentimento e realização da recolha dos dados, num gabinete designado para o efeito, no sentido de maximizar as condições de integridade, privacidade e salvaguarda do bem-estar das famílias; pela atribuição de um código por família, para que não pudessem ser identificados por outros elementos que não os da equipa de investigação; pelo desemparelhar os dados do consentimento dos respetivos protocolos de avaliação; pelas restrições de recolha de dados pessoais ao nível estritamente necessário para a investigação; pela criação de uma base de dados

eletrónica, onde cada família só seria identificada por um código; e pela garantia da utilização exclusiva dos dados para fins de investigação. Todas estas informações eram explicadas oralmente à família, no sentido de potenciar o esclarecimento de eventuais dúvidas em torno de procedimentos, e constavam da ficha de consentimento informado, facultado às famílias. Eram igualmente facultados os contactos e a afiliação institucional da investigadora principal e do clínico responsável, elo de ligação na instituição hospitalar onde a criança era seguida. À família era referido que, caso no decurso do processo de recolha de informação fossem recolhidos dados considerados inéditos e relevantes para o processo de acompanhamento da criança e respetiva família, esses dados seriam facultados à equipa médica, no caso de a família assim concordar, e após reflexão conjunta dos potenciais riscos e benefícios associados a essa partilha de informação, sempre com o intuito de melhorar a qualidade dos serviços que lhe eram prestados.

6 Principais opções de análise dados

No processo de análise de dados quantitativos utilizámos como suporte informático o *software Statistical Package for Social Sciences* nas suas versões 24 (Estudo VI) (IBM Corp, 2016), versão 21 nos Estudos II, III, IV e V (IBM Corp, 2012), o módulo *Process* no Estudo VI (Hayes, 2013), bem como o *Analysis of Product Moments* (AMOS, v. 21, Arbuckle, 2012) nos Estudos II, III, IV e V. Em seguida, apresentam-se as principais estratégias analíticas utilizadas no contexto da presente investigação que derivaram de um conjunto de tomadas de decisão decorrentes dos objetivos explicitados, da natureza dos métodos utilizados e dos dados recolhidos.

6.1 Análise de Equações Estruturais como técnica preferencial de análise de dados

A análise de equações estruturais (AEE) (no original inglês *Structural Equation Modeling*, SEM) trata-se, segundo Marôco (2014) de:

Uma técnica de modelação generalizada, utilizada para testar a validade de modelos teóricos, que definem relações causais, hipotéticas, entre variáveis. Estas relações são representadas por parâmetros que indicam a magnitude do efeito que estas variáveis, ditas independentes, apresentam sobre outras variáveis, ditas dependentes, num conjunto composto de hipóteses respeitantes a padrões de associações entre as variáveis no modelo (p. 3).

A opção preferencial pela AEE como técnica de análise de dados é consistente com a recomendação de Kazak (2002), segundo a qual a investigação em Psicologia Pediátrica deve ser fundada nos modelos teóricos disponíveis. O recurso à AEE exige a especificação do modelo, i.e., a definição à partida das relações causais uni e bidireccionais entre variáveis. Segundo Marôco (2014) é o “ desenho formal do modelo teórico que testa as questões de investigação e reflete as assunções, *a priori*, do referencial teórico do estudo” (p.27). O objetivo subsequente é analisar a qualidade do ajustamento do modelo, ou seja, examinar se o modelo hipotetizado é consistente com as relações observadas nos dados recolhidos. A estimação do modelo é feita a partir das matrizes de covariância das variáveis manifestas e não com base nas observações de cada sujeito em cada variável manifesta (Marôco, 2014).

Relativamente às análises de dados fundadas na análise de regressão tradicional, a AEE é considerada uma técnica mais robusta. Entre as vantagens associadas contam-se o facto de o modelo ser estimado a partir da matriz de covariâncias que inclui todas as variáveis dependentes e independentes, de modo simultâneo, viabilizando o controlo das fontes de não independência entre elementos da díade (variância partilhada) – covariando os resíduos e as variáveis independentes. Para além disso, ao proporcionar índices de ajustamento dos dados da amostra ao modelo hipotetizado, ao mesmo tempo que integra informação relativa ao erro de medida, a AEE é passível de remover o erro de medida da estimação das associações entre variáveis (Byrne,

2010; Marôco, 2014). O recurso às AEE permite ainda comparar e avaliar estatisticamente a dimensão dos parâmetros no interior do modelo, i.e., comparar a magnitude de efeitos específicos (Kenny et al., 2006).

A utilização de técnicas de análise de dados mais sofisticados, como é o caso da AEE, tem como contrapartida a necessidade de recrutamento de amostras mais alargadas, o que constitui um grande desafio ao nível da Psicologia Pediátrica, atendendo à baixa frequência da maior parte das CCSP, como é o caso da epilepsia.

6.2 Análise dos mecanismos de mediação e de moderação

A análise dos mecanismos de mediação e de moderação tem ganhado uma importância crescente na investigação em Psicologia uma vez que viabilizam uma abordagem compreensiva (e não meramente descritiva) das relações entre variáveis, examinando possíveis mecanismos causais de influência (Preacher & Hayes, 2008). No caso da mediação, os modelos de mediação múltipla são particularmente úteis uma vez que permitem determinar as magnitudes relativas de efeitos indiretos específicos associados a mais do que um de mediador de modo simultâneo, proporcionando a possibilidade de serem examinadas teorias concorrentes (Preacher & Hayes, 2008).

No contexto da presente investigação, na análise dos mecanismos de mediação recorreu-se a modelos de equações estruturais, uma vez que permitem a análise simultânea de mecanismos complexos (modelos de trajetória de efeitos diretos e indiretos; modelos complexos com duas ou mais variáveis mediadoras e várias variáveis dependentes), ao invés do cálculo de regressões separadas para cada variável dependente considerada (Kline, 2011; Marôco, 2014). Na AEE, todos os coeficientes de trajetória são estimados de forma simultânea, ao mesmo tempo que é possível isolar os efeitos indiretos associados a cada variável mediadora (Kline, 2011; Marôco, 2014).

Seguindo as recomendações de Kline (2011), optámos por adotar uma abordagem generativa (*model generating approach*). Nesta medida, começámos por especificar o modelo hipotetizado - tendo por base os resultados de estudos empíricos anteriores e em face do que está previsto teoricamente em termos de associações entre variáveis-, e depois examinámos as correlações bivariadas entre variáveis, no sentido de investigar outras associações que devêssemos atender no modelo. Seguindo as recomendações de Williams e Mackinnon (2008), a significância estatística dos efeitos indiretos e as diferenças na magnitude de trajetórias indiretas significativas a ligar cada par de variáveis predictoras e critério por via de diferentes mediadores (Estudos III, IV, V) foi estimado com recurso aos procedimentos reamostragem *bootstrapping* com 1000 (Estudos III e IV) e 5000 (estudo V) amostras e para um intervalo de confiança corrigido de 95% (BC 95% CI). De acordo com os mesmos autores, este é considerado um

método que maximiza o poder das análises ao mesmo tempo que possibilita um maior controlo do erro tipo I, através da definição de intervalos de confiança para os efeitos indiretos (Williams & Mackinnon, 2008).

Em contrapartida, a análise dos mecanismos de moderação permite a especificação de fatores que afetam a direção e força da associação entre uma variável independente ou preditora, e uma variável dependente ou critério (Rose et al., 2004). No contexto da presente investigação, e seguindo as recomendações de Holmbeck (2002b), no examinar de mecanismos de moderação entre variáveis recorreu-se a análises de regressão linear múltipla hierárquica.

6.3 O Actor-Partner interdependence Model

O reconhecimento da não-independência das características e resultados de adaptação dos membros da mesma díade (pai/mãe-filho) teve implicações ao nível de opções realizadas tanto no plano conceptual, como metodológico e de análise estatística dos dados do projeto.

Para analisar e testar as relações de interdependência e respetivas consequências, Kenny e colegas (2006) desenvolveram o modelo de análise de dados diádicos, o *Actor-Partner interdependence Model* (APIM, D. Kenny et al., 2006; Ledermann, Macho, & Kenny, 2011). O APIM utiliza a díade como unidade de análise e proporciona estimativas separadas, mas simultâneas, dos efeitos de ator e de parceiro. Um efeito de ator ocorre quando o resultado de um participante numa variável preditora influencia o resultado dessa mesma pessoa numa variável critério. Um efeito parceiro tem lugar quando o resultado de uma pessoa numa variável preditora influencia o resultado do seu parceiro, numa variável critério. O APIM pode ser utilizado para testar hipóteses específicas relacionadas com vários efeitos, designadamente, se o efeito ator e o efeito parceiro são significativos, e se tem a mesma magnitude nas crianças e nos seus pais. No caso específico do Estudo IV recorreu-se à aplicação do APIM às análises de mediação diádicas, modelo designado de APIMeM (Ledermann et al., 2011), e utilizando como técnica de análise de dados a AEE. À semelhança do recomendado por vários autores (e.g., Bai & Han, 2016; Song, Rini, Ellis, & Northouse, 2016), primeiro testámos as trajetórias diretas (i.e., os dois efeitos ator e os dois efeitos parceiro), e depois testámos as trajetórias de mediação. De modo a atender à variância partilhada dos resultados de pais e de filhos da mesma díade, todas as variáveis exógenas e os erros das variáveis endógenas foram correlacionados entre membros da díade de modo a que os efeitos de ator fossem estimados enquanto se controlavam os efeitos parceiro e vice-versa.

CAPÍTULO III

CONTRIBUTOS EMPÍRICOS
E DE REVISÃO

CONTRIBUTOS EMPÍRICOS E DE REVISÃO

Estudo I

Adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica: Revisão empírico-conceitual

Estudo II

Social comparison in parents of children with chronic conditions: Results from the Portuguese version of the Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure

Estudo III

Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family's condition management

Estudo IV

Family cohesion, stigma and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents

Estudo V

Family rituals in pediatric epilepsy: Links to parental competence and adaptation

Estudo VI

The psychological costs of comparisons: Parents' social comparisons moderates the links between family management of epilepsy and children's outcomes

Estudo I

Adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica: Revisão empírico-conceptual

Teresa Mendes • Carla Crespo

2014, *Psicologia, Saúde e Doenças*, 15 (2), 314-334

doi:10.15309/14psd150202

Adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica: Revisão empírico-conceptual

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo²

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

Resumo

A epilepsia constitui a condição neurológica mais comum em idade pediátrica, tendo impacto não só na vida da criança, mas de toda a família. Nas últimas décadas tem-se verificado um interesse crescente pelos resultados e processos explicativos da adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica. A investigação neste campo é muito diversa, e na sua maioria, pautada pela ausência de referenciais teóricos que guiem a integração dos dados num corpo de conhecimentos mais vasto. O presente artigo visa organizar os principais resultados de investigação na área, através do referencial socioecológico aplicado ao contexto da psicologia pediátrica (Kazak, 1989; Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009). Deste modo, começam por ser destacados modelos conceptuais em torno das relações doença-família, sendo depois focados os principais níveis sistémicos onde a investigação na adaptação familiar no contexto da epilepsia pode ser situada: dos microssistemas familiares e da doença, aos mesossistemas (relações com os sistemas escolar e de saúde), exossistema (redes de apoio social comunitário) e macrossistema (crenças culturais e estigma social). No final são tecidas considerações críticas em torno de aspetos metodológicos, bem como discutidas oportunidades de investigação futuras.

Palavras-chave: epilepsia pediátrica, adaptação, família, modelo socioecológico, revisão

Epilepsia pediátrica: Perceber a adaptação à doença no contexto da família

Ter epilepsia é muito mais do que sofrer de uma condição médica, ter crises e tomar medicação antiepiléptica. Consonante com o reconhecimento do modelo biopsicossocial de saúde, na atualidade, cada vez mais, a par dos aspectos bio e fisiológicos, é dada relevância aos aspetos psicossociais da epilepsia, cuja face mais visível é o ajustamento psicológico e qualidade de vida das crianças e jovens e respetivos familiares (Lach et al., 2006; Ronen, Fayed, & Rosenbaum, 2011).

Historicamente, a literatura em torno da adaptação no contexto mais vasto das condições crónicas de saúde pediátricas começou por assumir um foco quase exclusivo nas variáveis individuais, proporcionando visões acontextuais e tendencialmente negativas das implicações das várias condições de saúde no funcionamento psicológico. Nas últimas décadas tem-se verificado um interesse crescente pelas variáveis e processos de adaptação familiar, enfatizando-se a resiliência das famílias (Alderfer & Rourke, 2010; Kazak et al., 2009). As famílias, através dos seus membros individuais ou da sua organização como um todo, proporcionam o contexto no qual as questões da saúde e doença da criança em desenvolvimento são geridas, desempenhando um papel central na adaptação (Alderfer & Rourke, 2010). As crianças dependem da família em termos de tomada de decisão terapêutica e da comunicação com os prestadores de cuidados de saúde. As famílias garantem ainda cuidados básicos e suporte emocional ao longo do percurso da doença e dos desafios que se vão impondo (Barakat, Kunin-Batson, & Kazak, 2003). Em simultâneo, a doença pediátrica gera alterações nas rotinas e nos padrões de interação familiares habituais, bem como nos papéis e responsabilidades dos vários elementos (Knafl et al., 2013). Neste sentido a doença tem impacto não só na criança, mas nos vários elementos da família, que se influenciam de modo recíproco (Barakat et al., 2003; Kazak et al., 2009).

As famílias respondem de formas distintas aos desafios apresentados por uma criança com condição crónica de saúde, sendo essas respostas situáveis num contínuo ajustamento-desajustamento (Kazak et al., 2009). A investigação tem procurado dar ênfase à compreensão dos mecanismos subjacentes à variabilidade na natureza e qualidade das respostas adaptativas individuais e familiares no contexto das condições de crónicas de saúde pediátricas, como a epilepsia, viabilizando o desenvolvimento de modelos teórico conceptuais. De seguida, serão apresentados modelos genéricos de adaptação familiar no contexto geral destas condições, apresentando-se posteriormente um modelo específico no contexto da epilepsia.

Modelos de adaptação nas condições crónicas de saúde pediátricas centrados na família

Os modelos teórico-conceptuais em torno da adaptação familiar às condições de saúde pediátricas são modelos heurísticos, que elencam um conjunto de determinantes do processo de adaptação, desenvolvidos com base nos resultados iniciais de investigações sobre o impacto das doenças. Referenciais como o modelo socioecológico (Kazak, 1989) ou o modelo de adaptação e confronto com a deficiência e o stress (Wallander, Thompson, & Alriksson-Schmidt, 2003; Wallander & Varni, 1998) assumem lugar de destaque. Em termos gerais, ambos os referenciais concebem a doença como um fator de stress ao qual a família e a criança são expostas por tempo indeterminado. Em simultâneo, perspetivam o confronto e a adaptação da família à doença, como dependente não só das características da doença, mas sobretudo da interrelação entre a criança, a família, e o meio que as envolve, bem como das crenças e perceções individuais e partilhadas pelos membros da família (Alderfer & Rourke, 2010; Barakat et al., 2003; Wallander & Varni, 1998). A adaptação à doença é encarada mais como um processo dinâmico, do que como um resultado, pelo que são possíveis respostas diferentes em fases distintas da doença ou do desenvolvimento da criança e da família.

Na linha das abordagens sistémicas, o modelo desenvolvido por Anne Kazak (1989) constitui a aplicação da teoria socioecológica do desenvolvimento de Bronfenbrenner (1979) ao contexto das condições crónicas de saúde pediátrica. Este modelo põe em destaque a multiplicidade de influências exercidas sobre a adaptação da criança no contexto da doença, focando-se nas interfaces entre sistemas, e nas implicações dessas interfaces na adaptação (Kazak, 1992; Kazak et al., 2009). De acordo com o modelo de Kazak, a criança é colocada ao centro de uma série de círculos concêntricos e interativos, que representam contextos sucessivamente mais abrangentes da ecologia social da criança, e com os quais está envolvida de forma directa ou indirecta. Os círculos mais próximos (microsistemas) incluem a própria doença e seus tratamentos, os contextos familiar, escolar, de saúde, bem como subsistemas destes contextos (e.g., mãe/pai; díade mãe/pai-filho), com os quais a criança contacta directamente. O círculo mais distante (macrossistema) representa as crenças culturais e sociais, os valores e as políticas sociais e económicas, cuja influência sobre o desenvolvimento e adaptação da criança é exercida de modo mais indireto. Ao nível intermédio encontram-se os mesossistemas, compostos pelas relações entre microsistemas (e.g., interações família-equipa de saúde; família-sistema escolar) e os exossistemas (e.g., ambiente laboral dos pais, redes de apoio social comunitário), contextos sociais onde a criança não está directamente implicada, mas dos quais recebe influência por vida da rede de relações da família.

Segundo o modelo socioecológico de adaptação à doença infantil, os contextos sociais da criança e da família são os principais determinantes da adaptação e das estratégias de

confronto com as condições crônicas de saúde (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009). Eventuais dificuldades experienciadas pela criança e sua família estarão relacionadas com as interações em curso com os sistemas (e.g., saúde, educação, segurança social), com os recursos individuais e familiares de coping ou com a sua estrutura e funcionamento familiar. Ao conceptualizar as formas complexas como os sistemas relevantes na vida dos doentes pediátricos e suas famílias interagem para moldar o desenvolvimento e a adaptação, o modelo permite identificar, nos distintos níveis sistémicos, fontes de constrangimento ou de apoio à adaptação no curso da doença, bem como elencar potenciais intervenções com vista a melhorar o ajustamento físico e social/psicológico da criança (Barakat et al., 2003).

Num plano mais específico, Joan Austin (1996) propôs um modelo de adaptação familiar no contexto da epilepsia pediátrica, procurando explicar a trajectória destas famílias desde o momento do diagnóstico. Uma das premissas da autora parte é que os desafios concretos decorrentes da presença da condição clínica na família não são uniformes. Isto não só porque a epilepsia constitui uma condição médica heterogénea, mas também porque o percurso da doença tem de ser contextualizado nas características da família (recursos e exigências normativas e não normativas) e da criança na altura do diagnóstico. O modelo prevê que famílias sujeitas a fontes de stress elevadas prévias ao início das crises estarão mais vulneráveis à emissão de respostas desajustadas. Famílias com mais recursos (e.g., comunicação, coesão, rede de suporte social, segurança financeira) estarão numa posição mais favorável para lidar de forma bem-sucedida com o início das crises. De acordo com o modelo, determinadas características da criança podem assumir-se como vulnerabilidades ou forças. Um temperamento prévio mais difícil, limitações funcionais comórbidas como défice cognitivo, atrasos no desenvolvimento da linguagem ou problemas de comportamento e/ou aprendizagem, poderão influenciar a as atitudes e comportamentos de pais e filhos face à epilepsia, assim como a respetiva adaptação. Uma vez o diagnóstico estabelecido, inicia-se o período de adaptação. A sustentação de atitudes positivas em relação à condição é tomada como um dos preditores mais importantes de adaptação bem sucedida nos pais e nos filhos (Austin, 1996). Informação adequada sobre a condição de saúde tornará os pais menos ansiosos em relação à epilepsia dos filhos. A existência de equipas de saúde, capazes e disponíveis para prestarem serviços de qualidade, avaliando as necessidades específicas de cada família constitui, a par das mudanças na equação recursos/desafios, outros dos determinantes previstos no processo de adaptação (Austin, 1996).

Adaptação individual e familiar: Aplicação do referencial socioecológico na revisão dos resultados de investigação

De modo a integrar a diversidade de resultados de investigação sobre adaptação individual e familiar no contexto da epilepsia pediátrica, apresenta-se, de seguida uma revisão organizada à luz do referencial socioecológico (Kazak et al., 2009). Deste modo, é realizado um percurso que examina os diferentes níveis ecológicos sucessivamente mais abrangentes enquanto contextos onde se desenrola a adaptação individual e familiar como ilustra a Figura 1. A nível microssistémico abordam-se a doença, os indivíduos (crianças e adolescentes com epilepsia, pais cuidadores), as relações-diádicas (relações pais-filhos), e posteriormente, a família como um todo. Em níveis sistémicos posteriores é explorada a relação da família com os sistemas exteriores mais significativos - sistema de saúde e escolar (nível mesossistémico), o papel das redes de apoio comunitário (nível exossistémico) e por último das crenças culturais e sociais em torno da epilepsia (nível macrossistémico).

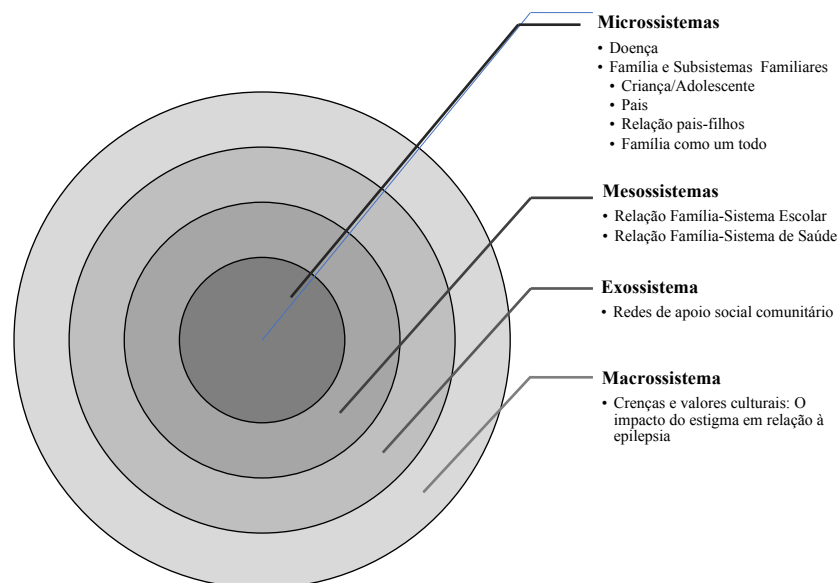


Figura 1 - Níveis sistémicos contemplados na presente revisão com base no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak et al., 2009)

Microssistemas

Epilepsia: Aspetos médicos e epidemiológicos

A epilepsia enquanto condição de saúde pediátrica e o respetivo tratamento, constituem um microssistema crítico para a vida das crianças e suas famílias (Kazak et al., 2009). Afetando

entre 0.5% e 1% das crianças até à idade dos dezasseis anos, a epilepsia constitui a condição neurológica mais comum em idade pediátrica (Oka et al., 2006). A epilepsia congrega um conjunto heterogéneo de condições e apresentações cujo denominador comum é a ocorrência de crises epiléticas recorrentes e espontâneas (Panayiotopoulos, 2007). A maioria dos doentes epiléticos tem a sua primeira crise antes de completar vinte anos de idade. O diagnóstico exige a ocorrência de pelo menos duas crises sem precipitante (Berg et al., 2010). Durante as crises existe uma descarga neuronal acompanhada de uma alteração súbita, involuntária e limitada no tempo, de uma ou mais funções cerebrais, das quais poderão resultar perturbações da consciência, movimentos involuntários, alterações da sensibilidade, percepção, comportamento ou funções autonómicas (Berg et al., 2010; Panayiotopoulos, 2007). A semiologia das crises é influenciada por fatores como a maturação cerebral, a localização do foco e a difusão da crise (Fisher et al., 2005). As crises são designadas de focais (parciais), quando circunscritas a uma região específica do cérebro, ou generalizadas, caso impliquem o envolvimento, desde o início da crise, de ambos os hemisférios cerebrais (Fisher et al., 2005). As crises generalizadas produzem perda de consciência, seja muito brevemente (poucos segundos), seja por períodos de tempo mais longos, e entre elas destacam-se as crises tónico clónicas generalizadas, mioclónicas e as ausências (Panayiotopoulos, 2007). As crises focais podem ser simples, complexas ou seguidas de generalização. Em idade pediátrica é comum a presença de múltiplos tipos de crises e progressão de um tipo de crise para outro (Shinnar & Pellock, 2002). Quanto à etiologia, as epilepsias podem ser classificadas em três grandes grupos: estrutural metabólica, genéticas e de causa desconhecida (Berg et al., 2010). As epilepsias de etiologia estrutural-metabólica são aquelas cujas crises são secundárias a patologia cerebral identificável (e.g., lesões hipóxico-isquémicas neonatais, processos infecciosos, malformações cerebrais, tumores, traumatismos crânio-encefálicos). Na etiologia do tipo genético é identificada uma causa genética (e.g. epilepsias benignas de infância). Tal não sendo possível, a epilepsia é considerada de causa desconhecida. Estima-se que entre 25 a 45% de crianças com epilepsia apresente um “duplo diagnóstico”, ou seja, presença de condições neurológicas adicionais (e.g., paralisia cerebral, autismo), com impacto mais expressivo em termos de funcionalidade futura, que a epilepsia em si (Shinnar & Pellock, 2002). Com os progressos verificados a nível médico e farmacológico, mais de dois terços das crianças ou jovens que iniciam medicação antiepilética apresentarão, a certa altura do seu percurso da doença, remissão completa dos sintomas (Sillanpaa & Schmidt, 2009). Noutros casos a medicação terá de ser mantida para a vida adulta. O critério médico habitual para suspensão do tratamento é ausência de crises por um período de dois anos (Panayiotopoulos, 2007). Em cerca de 20% das crianças com epilepsia não se consegue um bom controlo de crises, persistindo as crises refratárias à medicação (Sillanpaa & Schmidt, 2009). Entre os fatores de bom prognóstico destacam-se a ausência de alterações neurológicas

detetáveis e boa resposta inicial ao tratamento farmacológico (Sillanpaa & Schmidt, 2009). Do ponto de vista médico, o foco do tratamento centra-se no controlo das crises e na minimização dos efeitos secundários decorrentes da medicação. Entre os mais referidos contam-se a sonolência excessiva, a lentificação de pensamento, a irritabilidade, alterações de sono e apetite ou problemas de atenção (Glaser, 2004). No caso de fracasso de tratamento farmacológico, existem alternativas terapêuticas (e.g., cirurgia, dieta cetogénica), no entanto é necessária uma análise cuidada da respetiva adequabilidade (Panayiotopoulos, 2007).

Atendendo à natureza heterogénea das crises e síndromes epiléticos, tanto em termos de semiologia, como de eficácia do controlo sintomático, etiologia, comorbilidades associadas ou percurso desde o diagnóstico, clínicos e investigadores têm desenvolvido esforços no desenvolvimento de medidas objetivas de caracterização e avaliação da gravidade da condição epilética (Austin, Huberty, Huster, & Dunn, 1999; Speechley et al., 2008). A associação entre medidas de gravidade objetiva da condição epilética, e medidas de ajustamento psicológico ou qualidade de vida encontra, porém, suporte empírico inconsistente (Austin & Caplan, 2007; Modi, Ingerski, Rausch, & Glaser, 2011). Este dado enfatiza a importância da consideração das experiências subjetivas da criança e respetivos cuidadores, a par das variáveis clínicas, no estudo da adaptação à condição clínica.

Família e seus subsistemas

Adaptação individual das crianças e adolescentes com epilepsia

A avaliação psicológica dos resultados da adaptação individual nas condições crônicas de saúde tem seguido duas grandes tradições. A primeira foca o (des)ajustamento psicológico, considerando as condições de saúde como um fator de risco para a psicopatologia. A segunda tradição foca a qualidade de vida, global ou relacionada com a saúde, sendo esta última centrada nas percepções do sujeito sobre o impacto da condição de saúde e dos tratamentos, em diferentes dimensões da sua vida: física, psicológica ou social (Wallander et al., 2003).

Na literatura da epilepsia pediátrica, um número significativo de estudos tem posto em evidência a epilepsia como fator de risco acrescido para o desajustamento psicológico e para a experiência de níveis inferiores de qualidade de vida, em diferentes dimensões. Comparativamente aos pares saudáveis, ou com outras condições crônicas (e.g., asma, diabetes), as crianças com epilepsia apresentam prevalências superiores de sintomatologia psicopatológica, destacando-se as dificuldades emocionais, problemas de comportamento e atenção (Davies, Heyman, & Goodman, 2003; Hamiwka & Wirrell, 2009; Rodenburg, Stams, Meijer, Aldenkamp, & Dekovic, 2005), sendo esta prevalência ainda mais pronunciada em crianças com epilepsia de etiologia estrutural metabólica (Hamiwka & Wirrell, 2009). Relativamente à qualidade de vida relacionada com a saúde, e quando comparados com pares saudáveis, ou com outras condições de saúde (e.g., asma, diabetes), o grupo das crianças e adolescentes com epilepsia apresenta, geralmente, níveis inferiores de qualidade de vida, nas várias dimensões - psicológica, social e física, sendo esta associação mais significativa no grupo de crianças e adolescentes com epilepsia refratária (Cheung & Wirrell, 2006; Haneef et al., 2010; Lach et al., 2006). A performance académica é um barómetro importante na auto-estima das crianças e adolescentes, garante da continuidade e sucesso nos estudos e na entrada no mercado de trabalho. Os resultados de investigação são consistentes ao apresentarem a epilepsia como um fator de risco acrescido para a ocorrência de problemas de aprendizagem nos diferentes domínios - leitura, escrita, matemática, retenções escolares sucessivas ou necessidade de integração das crianças nas medidas de educação especial (Austin et al., 1999; Sillanpaa & Cross, 2009). São múltiplas as causas apontadas para o baixo aproveitamento escolar, nomeadamente a disfunção neurológica, as crises, a medicação e outros fatores psicossociais como a baixa autoestima, a desmotivação ou as atitudes negativas em relação à doença (Rodenburg, Wagner, Austin, Kerr, & Dunn, 2011). Em termos de funcionamento neuropsicológico, é frequente o registo de fragilidades nas funções cognitivas, designadamente na memória, atenção, linguagem, velocidade de processamento e nível intelectual global (Aldenkamp, Weber, Overweg-Plandsoen, Reijs, & van Mil, 2005; Fastenau

et al., 2004), sobretudo nas epilepsias do lobo temporal e frontal (Hamiwka & Wirrell, 2009). Em algumas crianças e adolescentes, estes problemas limitam mais a sua qualidade de vida, do que as crises epiléticas per se (Ronen et al., 2011).

Num estudo qualitativo realizado com adolescentes com epilepsia refratária à medicação, estes referem que a sua condição de saúde representa uma barreira para um sentido de normalidade desejado, permeando negativamente diferentes áreas de vida: física, académica, emocional e social (Elliott, Lach, & Smith, 2005). Dados de investigações longitudinais dão conta de importantes implicações negativas a longo prazo ao nível da escolaridade, empregabilidade e ajustamento social, mesmo quando o diagnóstico médico sugere evolução favorável, e se consegue um rápido controlo das crises (Sillanpaa & Schmidt, 2009).

Mas se parece consensual, pelos dados de investigação referidos, que a epilepsia constitui um fator de risco acrescido para ao desajustamento psicológico e para a experiência de níveis inferiores de qualidade de vida, importa enfatizar que estes mesmos dados permitem concluir que diagnóstico de epilepsia e presença de problemas de ajustamento psicológico/adaptação não têm de estar necessariamente associados. Na realidade, a maior parte das crianças com epilepsia mantém níveis adequados de ajustamento pessoal e social (Rodenburg et al., 2011). Dada a variabilidade considerável ao nível do ajustamento psicológico e qualidade de vida entre crianças e adolescentes com epilepsia, os esforços mais recentes de investigação têm-se centrado na identificação dos correlatos do ajustamento. Entre os fatores situados a nível individual das crianças e adolescentes referidos como exercendo um papel significativo na adaptação contam-se a idade de início ou a existência de comorbilidades cognitivas ou comportamentais prévias ao diagnóstico (Austin & Caplan, 2007; Fastenau et al., 2004).

Adaptação individual dos pais

O confronto com o diagnóstico de uma condição de saúde como a epilepsia constitui, para a generalidade dos pais, um momento de crise, desencadeando emoções difíceis de gerir, como a injustiça, a culpabilidade, o ressentimento crónico, a incerteza ou a ansiedade (Austin, 1996; Wu et al., 2008). Ao mesmo tempo, marca o início de um (longo) processo de reorganização e acomodação à “perda do filho perfeito” (Austin, 1996).

Dados de investigação são consistentes ao afirmar que pais de crianças com epilepsia encontram-se sujeitos a níveis elevados de desgaste físico e psicológico (Ferro & Speechley, 2009; Pei-Fan, 2005). Para além das tarefas habituais associadas à parentalidade, estes pais vêm-se investidos de responsabilidades acrescidas ao nível da monitorização diária da condição de saúde dos filhos, registo e gestão das crises, identificação e gestão de eventuais efeitos

secundários da medicação e articulação com os serviços médicos e educacionais (Buelow, McNelis, Shore, & Austin, 2006; Wagner et al., 2009).

A imprevisibilidade e incerteza em torno das manifestações sintomáticas da condição de saúde dos filhos são geradoras de um extenso leque de medos e preocupações. Entre estes, destacam-se o eventual impacto negativo das crises e da medicação em dimensões do desenvolvimento e comportamento da criança (e.g. linguagem, coordenação motora, comportamento, auto-estima, capacidade intelectual) (Aytch, Hammond, & White, 2001; Buelow et al., 2006), a possibilidade do filho ser alvo de discriminação e estigma (MacLeod & Austin, 2003; Wagner et al., 2009), falecer ou de sofrer danos físicos no decurso de uma crise (Aytch et al., 2001; Shore, Buelow, Austin, & Johnson, 2009), o ajustamento dos filhos na escola (Buelow et al., 2006; Wagner et al., 2009) ou o impacto da doença nas relações familiares (Aytch et al., 2001; Buelow et al., 2006; Shore, Perkins, & Austin, 2008). Sentimentos de desesperança e incompetência podem surgir resultado da incapacidade para controlar as crises, no caso das epilepsias mais severas, aumentando o nível de stress vivido (Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2007). Contudo, os dados referentes ao acréscimo nos níveis de stress parental entre pais com filhos com epilepsia não são consensuais. Modi (2009), ao comparar dois grupos de mães com filhos com e sem diagnóstico recente de epilepsia, ambos provenientes de agregados com baixos recursos económicos, não detetou diferenças significativas ao nível do stress parental relativo à condição de saúde. Constituem fatores de risco para o stress parental e desajustamento psicológico a presença de graves problemas de aprendizagem, deficit intelectual ou problemas emocionais na criança (Buelow et al., 2006; Cushner-Weinstein et al., 2008). À medida que aumenta o tempo desde o diagnóstico, os níveis de stress relatados pelos pais tendem a decrescer, embora persistam superiores aos verificados nas famílias sem filhos com esta condição de saúde (Shore et al., 2009). Numa outra linha de investigação, e uma vez que existem certos tipos de epilepsia de expressão sintomática predominantemente noturna/induzida pelo sono, têm-se investigado os padrões de sono dos pais, sendo que os estudos não são consensuais. Alguns estudos registam a ocorrência de alterações significativas na quantidade e qualidade de sono das mães, designadamente mudanças para formatos menos autónomos de rotinas de sono após o início das crises (Williams et al., 2000), ao passo que outros não detetam alterações significativas (e.g., Modi, 2009). Trata-se de um dado importante, em face da associação largamente verificada entre problemas de sono e sintomatologia depressiva (Williams et al., 2000).

São as mães quem mais frequentemente protagoniza os cuidados de saúde prestados aos filhos (Raina et al., 2004; Shore, Austin, & Dunn, 2004). Enquanto grupo, e quando comparadas com os pais, as mães de crianças com epilepsia tendem a evidenciar níveis superiores de preocupação, a perspetivarem os filhos como mais vulneráveis e a referirem maiores e mais

prolongadas necessidades de apoio (Chapieski et al., 2005; Ramaglia et al., 2007; Shore et al., 2009). Estas diferenças entre pais e mães são mais pronunciadas nos casos de epilepsias refratárias (Wirrell, Wood, Hamiwka, & Sherman, 2008). Estudos recentes referem que entre 30 a 50% das mães confrontadas com um diagnóstico de epilepsia nos filhos encontram-se em risco desenvolver uma perturbação depressiva, uma proporção significativamente superior à apresentada por mães de crianças da população geral (Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011b; Ferro & Speechley, 2009). O mesmo se verifica em relação à presença de sinais de ansiedade clinicamente significativos (Chapieski et al., 2005; Lv et al., 2009; Yong, Chengye, & Jiong, 2006). Entre os fatores passíveis de funcionar como de risco para a adaptação materna destacam-se a presença de problemas emocionais ou de aprendizagem na criança, níveis inferiores de satisfação com as relações familiares e níveis elevados de desesperança (Ferro et al., 2011b; Shore et al., 2004).

Relação pais-filhos

Uma das dimensões em que o exercício da parentalidade se equaciona é o da negociação de equilíbrios entre a proteção da criança e a promoção da sua autonomia (Bowlby, 1980). A face mais proximal destes jogo de equilíbrios expressa-se no espaço das relações diádicas pais-filho. As doenças crónicas pediátricas representam e comportam preocupações e desafios adicionais, não normativas, em termos de práticas parentais. Estes pais vêem-se perante a necessidade de integrar a realidade da doença dos filhos, adaptarem-se às exigências colocadas pelos sintomas e tratamentos, lidar com um conjunto de informação diversa, que nem sempre percebem (ou falta dela), e ao mesmo tempo proporcionar condições para que os filhos tenham uma vida o mais normal possível, não se centrando excessivamente nas diferenças impostas pela doença e mantendo uma atitude proativa e otimista em termos de coping, ajudando os filhos a fazer o mesmo (Knafl et al., 2013; Rolland, 1994).

Os medos e preocupações manifestados pelos pais em relação à epilepsia podem afetar negativamente as atitudes e comportamentos parentais, comprometendo o cumprimento das tarefas desenvolvimentais em curso. O stress parental é tomado como um dos determinantes mais significativos das práticas parentais inadequadas (Abidin, 1992). No contexto da epilepsia pediátrica, níveis elevados de stress no ambiente familiar tendem a associar-se a baixos níveis de auto confiança parental, e à adoção de comportamentos parentais de controlo e sobreproteção (Rodenburg et al., 2007).

Ostrom e colegas analisaram as perceções dos pais em torno do impacto do diagnóstico de epilepsia na parentalidade, e da reação dos filhos face ao início da doença (Ostrom et al., 2001). Os autores verificaram que quase metade dos pais da sua amostra (48%)

assumiu dificuldade de ajustamento ao diagnóstico, reconhecendo ter alterado as práticas parentais após conhecimento da doença do filho. O estudo revelou ainda associações negativas significativas entre alteração percebidas nas práticas parentais educativas e desempenhos nas medidas comportamentais, cognitivas e de aprendizagem dos filhos (Ostrom et al., 2001). A presença de história familiar de epilepsia não constituiu, segundo o mesmo estudo, fator de proteção para a ocorrência de alterações nas práticas parentais.

Família como um todo

O funcionamento familiar desempenha um papel central na adaptação da criança e de toda a família, às condições crónicas de saúde infantis. Dimensões como a coesão, a flexibilidade ou o conflito familiar são referidos como dimensões críticas nesse funcionamento (Kazak et al., 2009). No caso das famílias com criança com epilepsia, o risco acrescido de sobrecarga na prestação de cuidados, bem como de incidência de problemas de ajustamento psicossocial faria supor dificuldades acrescidas ao nível das várias esferas do funcionamento familiar. No entanto, quando se comparam famílias com filho com epilepsia, com famílias com filhos com outras condições crónicas de saúde, os resultados da investigação são pouco consensuais. Certos estudos sugerem níveis consistentemente inferiores de funcionamento familiar adaptativo nas famílias com epilepsia (Chiou & Hsieh, 2008). Outros, como os Herzer e colegas, referem que as principais fontes de preocupação entre família com filhos com epilepsia são comuns às das famílias com filhos com outras condições de saúde bem como às famílias com filhos saudáveis, situando-se nos domínios da comunicação afetiva e diferenciação de papéis (Herzer et al., 2010). Resultados semelhantes são referidos por Thornton e colegas, sendo referido pelos autores níveis superiores de envolvimento familiar entre as famílias com filhos com epilepsia (Thornton et al., 2008). No que respeita às rotinas e organização do tempo familiar, há estudos que sugerem que os pais de crianças recém diagnosticadas com epilepsia despendem mais tempo em cuidados de saúde e menos em atividades recreativas no exterior, quando comparados com pais de crianças sem condições de saúde (e.g., Modi, 2009). Este aspeto poderá estar associado a receios em relação à ocorrência das crises, constituindo uma forma de salvaguardar a segurança da criança (Buelow et al., 2006).

Quando se analisam os preditores da adaptação de crianças com epilepsia, ou em seus pais cuidadores, a qualidade do ambiente familiar constitui uma das variáveis psicossociais que tem recebido suporte empírico mais consistente na literatura (Austin & Caplan, 2007; Austin et al., 2010). Ambientes familiares mais apoiantes e coesos estão geralmente associados a melhores resultados de adaptação psicológica de filhos e pais (Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011a). Em contrapartida, conflito familiar, stress parental elevado ou práticas parentais

sobreproteção ou controlo predizem, de modo consistente, presença de problemas comportamentais e emocionais nas crianças, bem como níveis inferiores de qualidade de vida (Rodenburg et al., 2007). De acordo com vários estudos, na presença de outros preditores importantes da adaptação, como a gravidade da condição clínica ou a existência de problemas de comportamento ou aprendizagem, a qualidade do ambiente familiar parece representar um importante fator moderador do impacto da doença (e.g., Austin et al., 2010; Fastenau et al., 2004). Esta influência parece ser exercida por via das variáveis da parentalidade (Rodenburg et al., 2011).

Mesosistemas

Zoom na relação família - sistema escolar

Uma parte significativa da vida das crianças é passada nas instituições escolares, sendo tarefa essencial da infância a participação bem-sucedida neste contexto. A inscrição da epilepsia na família, pelas suas características e correlatos prováveis ao nível do ajustamento escolar da criança ou jovem, acarreta desafios particulares na relação família-escola. Entre os aspetos que os pais referem como mais problemáticos na relação com o sistema escolar, contam-se a falta de oportunidade para explicar a epilepsia aos colegas do filho, o desconforto sentido pelos professores em relação a estes alunos e a escassez e falta de eficácia das respostas escolares caso o filho apresente problemas de aprendizagem (Rodenburg et al., 2011; Wagner et al., 2009). Alguns pais mencionam mesmo sentirem-se desapoiados pelo sistema escolar (Wu et al., 2008). Relativamente à comunicação da condição de saúde do filho, a maioria dos pais reconhece a necessidade e vantagem da escola estar a par da mesma (Wagner et al., 2009; Wu et al., 2008).

Vários estudos têm procurado analisar a natureza das atitudes e conhecimento dos professores em relação às crianças com epilepsia, bem como respetivas implicações ao nível da relação pedagógica e adaptação escolar destas crianças (e.g., Bishop & Boag, 2006; Fernandes et al., 2007). Os dados empíricos são consistentes ao afirmar que a maioria dos professores sustenta atitudes positivas em relação às crianças com epilepsia, porém, reconhecem desconhecer os diferentes tipos de crises epiléticas, efeitos secundários da medicação, impacto da epilepsia no perfil de aprendizagem do aluno ou a gestão adequada de situações de crise em sala de aula. Wodrich (2005) salienta que o desconhecimento constitui um fator de risco acrescido para a realização de atribuições negativas em relação ao fracasso escolar e aos problemas de comportamento evidenciado por alguns destes alunos, designadamente em termos de “preguiça ou má vontade”, “falta de descanso”, fraco envolvimento parental ou falta de

capacidades. Estas atribuições de cariz negativo tendem a associar-se a um decréscimo de expectativas em relação às capacidades de realização escolar destas crianças (Bishop & Boag, 2006; Fernandes et al., 2007; Wodrich, 2005).

Zoom na relação família - sistema de saúde

Os modelos recentes dos serviços de prestação de cuidados de saúde à criança estão cada vez mais centrados na família, assumindo a capacidade desta, para gerir e monitorizar os estados de saúde da criança, os tratamentos diários, bem como protagonizar tomadas de decisão em relação à adoção (ou não) de medidas de apoio suplementares (Barros, 2003; Kratz, Uding, Trahms, Villareale, & Kieckhefer, 2009). A ampliação das fronteiras familiares, imposta pelas circunstâncias da condição de saúde, coloca desafios adicionais à capacidade da família para se articular com uma rede de profissionais bastante numerosa (e.g. neuropediatras, psicólogos, pedopsiquiatras, enfermeiros, terapeutas ocupacionais, técnicos de serviço social, nutricionistas, entre outros), com perspetivas, por vezes, discrepantes em relação às áreas de impacto e prognóstico futuro da condição de saúde na criança em desenvolvimento (Gannoni & Shute, 2010; Kratz et al., 2009). Para além do papel parental, estes pais, com especial relevo para aqueles com “diagnóstico duplo” (ie. situações em que o diagnóstico de epilepsia está associado a atraso global no desenvolvimento), vêem-se, por vezes, investidos do papel de coordenadores de cuidados de saúde, especialistas médicos, defensores dos direitos dos filhos e gestores das relações entre sistemas. Para desenvolverem relações colaborativas, os pais precisam de se sentir confiantes na sua capacidade para desempenharem este acréscimo de funções e responsabilidades (Kratz et al., 2009). A confiança mútua, o respeito pelo contributo que cada uma das partes, a capacidade para se envolverem em processos de decisão partilhada, constituem ingredientes essenciais da relação família-sistema de saúde (Blue-Banning, Summers, Frankland, Nelson, & Beegle, 2004). Nem sempre esta colaboração é bem-sucedida, sendo que alguns estudos reportam a existência frequente de conflitos, com reflexo na qualidade dos serviços prestados à criança (e.g., Blue-Banning et al., 2004). Ao nível da relação com os sistemas de saúde, é comum os pais referirem pouca disponibilidade dos profissionais para os escutarem, dificuldades em lidar com o escrutínio, burocracias e complexidades do sistema (Kratz et al., 2009). Dados revelam que comunicação efetiva entre sistema de saúde e educativo só se verifica numa pequena percentagem de casos (Kwong, Wong, & So, 2000; Power, 2006). São geralmente os pais quem protagoniza a articulação, tendo de lidar com diferenças significativas ao nível dos códigos de linguagem, prioridades e modos de atuação que pautam cada um dos sistemas em

questão (Power, 2006). Esta tarefa é referida pelos pais como geradora de sobrecarga adicional e nem sempre conduzindo aos resultados desejados (Wu et al., 2008).

Exossistema

O papel das redes de apoio social comunitário

A importância do apoio social na adaptação das famílias com condições crónicas pediátricas está amplamente documentado (Raina et al., 2004). Na literatura da epilepsia, Rodenburg e colegas enfatizaram o papel protector do suporte social face ao stress parental e seus correlatos no exercício da parentalidade (Rodenburg et al., 2007). Práticas parentais inadequadas têm frequentemente, na sua base, falta de informação, crenças erróneas ou preocupações exageradas em torno das crises, formas de lidar, causas, efeitos secundários da medicação ou como evitar acidentes no caso específico de certas crises, que requerem contacto imediato com a equipa de saúde, mas que nem sempre os pais se permitem a partilhar (Aytch et al., 2001; Shore et al., 2009; Wagner et al., 2009; Wu et al., 2008). Dados relativos à propensão dos pais para fazerem uso das redes de apoio comunitário e partilharem experiências e dúvidas com outros pais em contextos de grupos de ajuda mútua são divergentes (Wu et al., 2008). A existência de redes de suporte na comunidade parece assumir maior relevância nas famílias cuja epilepsia está associada a perturbação do desenvolvimento ou atraso mental (Aytch et al., 2001; Shore et al., 2009). Uma das explicações possíveis prende-se com o medo dos pais serem confrontados com situações de gravidade muito superior à do seu filho, querendo resguardar-se de tais experiências (Shore et al., 2009).

Macrossistema

O impacto do estigma em relação à epilepsia

Historicamente conhecida como o *mal sagrado* e ligada a fenómenos sobrenaturais de possessão demonológica, a epilepsia constitui uma condição de saúde que desde a antiguidade carrega um forte estigma social (Jacoby & Austin, 2007). Os discursos científicos dominantes na primeira metade do século XX acabaram igualmente por contribuir para a reificação deste estigma (Devinsky, Vorkas, Barr, & Hermann, 2008; Fernandes & Li, 2006). A introdução nos manuais psiquiátricos do conceito de personalidade epilética, caracterizada por um conjunto de

traços patológicos - impulsividade, viscosidade afetiva, egocentrismo, propensão para a violência -, e generalizado para todos os doentes epiléticos, invariavelmente percebidos como perigosos para a sociedade, comportou um impacto lesivo na vida dos doentes (Devinsky et al., 2008; Fernandes & Li, 2006). Apesar de na atualidade a relação entre a epilepsia as alterações de personalidade ter sofrido grandes alterações e do conceito de personalidade epilética ter caído em desuso, persiste forte controvérsia no interior da comunidade científica em relação ao tema (Devinsky et al., 2008).

Nas últimas décadas têm-se verificado uma melhoria significativa das atitudes e conhecimento públicos em relação à epilepsia. Entre os fatores que terão contribuído para a mudança contam-se a melhoria dos níveis médios de literacia das populações, bem como o número crescente de campanhas de informação e sensibilização promovidas por entidades governamentais e científicas e/ou associações de doentes em relação à doença e respetivo tratamento (Jacoby & Austin, 2007). Apesar disso, persistem estereótipos negativos em relação à epilepsia, geradores de atitudes que segregam as pessoas com a doença (Austin, MacLeod, Dunn, Shen, & Perkins, 2004; Fernandes & Li, 2006; Jacoby & Austin, 2007; MacLeod & Austin, 2003). A imprevisibilidade das crises, a natureza exuberante e socialmente sancionável das manifestações sintomáticas patentes nalguns tipos de crises epiléticas (e.g., descontrolo esfinteriano, cialorreira, movimentos corporais estranhos, perda de contacto com a realidade envolvente) e a permanência de conceções erradas sobre a natureza das mesmas, associadas a falta de informação, constituem alguns dos motivos passíveis de contribuir para a manutenção dos estereótipos (Fernandes & Li, 2006). É de referir que as atitudes discriminatórias, antecipadas ou percebidas, constituem uma barreira importante ao ajustamento psicossocial dos doentes com epilepsia e suas famílias, influenciando negativamente o seu bem-estar e qualidade de vida (Baker, Brooks, Buck, & Jacoby, 2000). Estudos com adolescentes com epilepsia têm revelado que apesar da maior parte não se sentir estigmatizado, uma maioria significativa assume não relevar ter epilepsia ou falar sobre a epilepsia (Austin et al., 2004). Este dado informa-nos sobre a natureza complexa dos processos através dos quais o conceito de estigma opera e da necessidade do seu impacto ser perspetivado em termos intrapessoais, interpessoais e institucionais (Jacoby & Austin, 2007). O estigma social assume um impacto significativo na vida de muitas das crianças com epilepsia e respetivos familiares, podendo funcionar como barreira no acesso e uso dos serviços educativos, médicos e sociais (MacLeod & Austin, 2003; Wagner et al., 2009; Wodrich, Kaplan, & Deering, 2006).

A família, e particularmente os pais, constituem figuras chave no processo através do qual os filhos com epilepsia constroem as suas significações em relação à doença (e.g. assumirem-na como uma “diferença indesejada”) e na forma como se relacionam com os outros (Fernandes & Li, 2006; Fernandes & Souza, 2001). Quando as reações dos pais ao diagnóstico

são negativas, a criança pode aprender a olhar a epilepsia como algo que deve manter secreto. Estudos sugerem serem os pais com atitudes mais negativas em relação à doença, os que evidenciam maior propensão para comportamentos de superproteção, permissividade ou rejeição, fundados na crença de que a oposição parental poderá ser precipitante de crise, e com decréscimo generalizado de expectativas em relação aos filhos (Carlton-Ford, Miller, Nealeigh, & Sanchez, 1997; Rodenburg et al., 2011). Crianças e adolescentes com epilepsia que reportam níveis mais elevados de estigma evidenciam maior propensão para problemas de autoestima, sintomas ansiosos e/ou depressivos (Austin et al., 2004).

Considerações críticas em torno da investigação no contexto da epilepsia pediátrica

Os conteúdos e metodologias de investigação em torno do impacto e adaptação individual e familiar no contexto da epilepsia pediátrica têm sofrido grande evolução nos últimos anos. A preocupação inicial em evidenciar o impacto negativo da presença da condição clínica epilética tem dado lugar à identificação de factores de cariz positivo, preditores da adaptação, bem como à compreensão dos mecanismos explicativos da adaptação individual e familiar no contexto da epilepsia.

Apesar do contributo inegável na valorização de aspetos de grande relevância na compreensão e promoção do bem-estar destas famílias e seus membros individuais, a investigação em torno da adaptação familiar na epilepsia pediátrica, nos vários níveis sistémicos em que foi aqui equacionada, tem produzido alguns resultados contraditórios. Importa, por isso, refletir criticamente em torno de aspetos metodológicos passíveis de esclarecer alguma dessa inconsistência, e que poderão ser tomados em consideração na investigação futura.

Uma das principais dificuldades na investigação da epilepsia pediátrica prende-se com a definição da amostra. As crises e síndromes epiléticos congregam condições clínicas muito heterogéneas, sendo comum a ocorrência de comorbilidades. A pouca especificidade na definição dos critérios de inclusão/exclusão dos sujeitos, a omissão de dados de caracterização clínica da epilepsia ou respetivas comorbilidades e o recurso inconsistente a medidas da gravidade clínica da doença são aspetos que introduzem variáveis confundentes que importa controlar em investigações futuras. O tipo de crises que a criança apresenta, e o facto de serem sensibilizadas pelo sono ou não poderá revelar-se um aspeto importante na compreensão dos impactos na família. Vários autores defendem a utilização de amostras mais homogéneas, definidas pelo critério clínico (tipo de crises, etiologia), ou pelo critério funcional (Austin & Caplan, 2007). Tal estratégia não é isenta de dificuldades, designadamente os custos temporais

associados ao recrutamento de um número suficiente de participantes. Os próprios locais de recrutamento, geralmente unidades de saúde terciárias, em detrimento dos contextos naturais (escolas), consultórios privados ou unidades de saúde secundárias, são passíveis de gerar sobre-representação de casos clínicos mais graves e pertencentes a classes socioeconômicas mais desfavorecidas. A natureza predominantemente transversal dos estudos realizados tem dificultado a separação das variáveis que surgem em resposta ao diagnóstico de epilepsia, das variáveis que antecedem o próprio diagnóstico, ou que o ultrapassam. A inconsistência de resultados entre estudos pode refletir ainda a variabilidade nas medidas utilizadas para operacionalizar os mesmos construtos, o recurso a medidas genéricas ou específicas, ou o tipo de informantes utilizados. Apesar da robustez psicométrica das medidas genéricas e possibilidade da sua utilização com diferentes populações, é importante complementar a utilização destas medidas com outras mais sensíveis às especificidades da experiência da adaptação à condição epilética na família e sua variação ao longo do tempo. Relativamente aos informadores, e apesar de maior parte dos estudos partir da perspectiva de um dos pais, geralmente a mãe, dados recentes de investigação salientam divergências entre resultados reportados por pais e filhos, sendo importante recorrer a análises com múltiplos informadores (Wagner, Smith, & Ferguson, 2012). E se a importância da família é inegável, não está claro, pela investigação revista, de que modo criança e família se influenciam mutuamente (Cummings, Davies, & Campbell, 2002), uma vez que os resultados de adaptação dos elementos da díade pais-filhos não têm sido considerados de modo simultâneo. Só muito recentemente se começou a recorrer a metodologias diádicas, e a atender à interdependência dos processos e resultados de adaptação entre os membros da díade (Ferro et al., 2011a; Wagner et al., 2012). Adicionalmente importa aprofundar a análise de eventuais diferenças ou semelhanças nos processos e trajetórias de adaptação à condição epilética percorrido por pais e mães. A grande amplitude etária das crianças e jovens com epilepsia que integram as amostras, com implicações em termos das tarefas normativas em curso, bem como o tempo que decorre desde o diagnóstico constituem outros fatores de influência na parentalidade e no ambiente familiar (Rolland, 1994). No futuro será importante que investigação nesta área seja pautada pela aplicação de referenciais teóricos consistentes (Kazak, 1989; Wallander et al., 2003). Tal facilitaria a seleção e organização de variáveis de investigação, proporcionando maior consistência na avaliação dos resultados.

O percurso efetuado ao longo desta revisão constituiu um ensaio de organização da diversidade empírica em torno da adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica, por aplicação do referencial socioecológico. Assim, a opção subjacente à seleção e organização dos conteúdos foi baseada neste referencial, não se adotando a metodologia de revisão sistemática. Tal opção implica a necessidade de contextualização dos resultados desta revisão e de cautela na interpretação dos mesmos. É ainda de realçar que, esta revisão não é exaustiva, ou seja, não

incluiu todos os conteúdos relevantes nos vários níveis ecológicos: temas como a adaptação dos irmãos ou o impacto nas dinâmicas conjugais não foram alvo de análise. Apesar das limitações apontadas, considera-se que a presente revisão pode contribuir para a prática clínica e investigação na área ao ilustrar a utilidade do modelo socioecológico na identificação de factores passíveis de promover ou comprometer a adaptação individual e familiar, bem como na compreensão das formas complexas de interacção entre os vários sistemas relevantes na vida dos doentes pediátricos. Estes aspetos revelam-se essenciais na identificação precoce famílias em risco de pior adaptação, bem como no fornecimento de pistas empíricas para a estruturação de programas de intervenção com vista à promoção da adaptação, saúde e bem-estar das crianças e adolescentes com epilepsia, dos seus familiares e do grupo familiar como um todo.

Referências

Abidin, R. R. (1992). The determinants of parenting behavior. *Journal of Clinical Child Psychology, 21*, 407-412. doi: 10.1207/s15374424jccp2104_12.

Aldenkamp, A. P., Weber, B., Overweg-Plandsoen, W. C., Reijs, R., & van Mil, S. (2005). Educational underachievement in children with epilepsy: A model to predict the effects of epilepsy on educational achievement. *Journal of Child Neurology, 20*, 175-180. doi: 10.1177/08830738050200030101.

Alderfer, M. A., & Rourke, M. T. (2010). Family psychology in the context of pediatric medical conditions. In J. H. Bray & M. Stanton (Eds.), *The Wiley Blackwell handbook of family psychology* (pp. 527-538). Oxford, UK: Blackwell Publishing Ltd. doi: 10.1002/9781444310238.ch36.

Austin, J. K. (1996). A model of family adaptation to new-onset childhood epilepsy. *Journal of Neuroscience Nursing, 28*, 82-92.

Austin, J. K., & Caplan, R. (2007). Behavioral and psychiatric comorbidities in pediatric epilepsy: Toward an integrative model. *Epilepsia, 48*, 1639-1651. doi: 10.1111/j.1528-1167.2007.01154.x.

Austin, J. K., Huberty, T. J., Huster, G. A., & Dunn, D. W. (1999). Does academic achievement in children with epilepsy change over time? *Developmental Medicine & Child Neurology, 41*, 473-479. doi: 10.1111/j.1469-8749.1999.tb00640.x.

Austin, J. K., MacLeod, J., Dunn, D. W., Shen, J., & Perkins, S. M. (2004). Measuring stigma in children with epilepsy and their parents: Instrument development and testing. *Epilepsy & Behavior, 5*, 472-482. doi: 10.1016/j.yebeh.2004.04.008.

Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2010). Self-esteem and symptoms of depression in children with seizures: Relationships with neuropsychological functioning and family variables over time. *Epilepsia, 51*, 2074-2083. doi: 10.1111/j.1528-1167.2010.02575.x.

Aytch, L. S., Hammond, R., & White, C. (2001). Seizures in infants and young children: An exploratory study of family experiences and needs for information and support. *Journal of Neuroscience Nursing, 33*, 278-285.

Baker, G. A., Brooks, J., Buck, D., & Jacoby, A. (2000). The stigma of epilepsy: An european perspective. *Epilepsia, 41*, 98-104.

Barakat, L.P., Kunin-Batson, A., & Kazak, A.E. . (2003). Child health psychology. In I. B. Weiner, A. Nezu, C. Nezu & P. A. Geller (Eds.), *Handbook of psychology: Health psychology* (pp. 439-464). NY: Wiley, John & Sons, Incorporated.

Barros, L. (2003). *Psicologia pediátrica, perspectiva desenvolvimentista* (2ª ed). Lisboa: Climepsi Editores.

Berg, A. T., Berkovic, S. F., Brodie, M. J., Buchhalter, J., Cross, J. H., van Emde Boas, W., . . . Scheffer, I. E. (2010). Revised terminology and concepts for organization of seizures and epilepsies: Report of the ilae commission on classification and terminology, 2005-2009. *Epilepsia*, *51*, 676-685. doi: 10.1111/j.1528-1167.2010.02522.x.

Bishop, M., & Boag, E. M. (2006). Teachers' knowledge about epilepsy and attitudes toward students with epilepsy: Results of a national survey. *Epilepsy & Behavior*, *8*, 397-405. doi: 10.1016/j.yebeh.2005.11.008.

Blue-Banning, M., Summers, J., Frankland, H., Nelson, L., & Beegle, G. (2004). Dimensions of family and professional partnerships: Constructive guidelines for collaboration. *Exceptional Children*, *70*, 167-184.

Bowlby, J. (1980). *Attachment and loss*. New York: Basic Books.

Bronfenbrenner, U. (1979). *The ecology of human development: Experiments by nature and design*. Cambridge, MA: Harvard University Press.

Buelow, J. M., McNelis, A., Shore, C. P., & Austin, J. K. (2006). Stressors of parents of children with epilepsy and intellectual disability. *Journal of Neuroscience Nursing*, *38*, 147-154, 176.

Carlton-Ford, S., Miller, R., Nealeigh, N., & Sanchez, N. (1997). The effects of perceived stigma and psychological over-control on the behavioural problems of children with epilepsy. *Seizure*, *6*, 383-391.

Chapieski, L., Brewer, V., Evankovich, K., Culhane-Shelburne, K., Zelman, K., & Alexander, A. (2005). Adaptive functioning in children with seizures: Impact of maternal anxiety about epilepsy. *Epilepsy & Behavior*, *7*, 246-252. doi: 10.1016/j.yebeh.2005.05.002.

Cheung, C., & Wirrell, E. (2006). Adolescents' perception of epilepsy compared with other chronic diseases: "Through a teenager's eyes". *Journal of Child Neurology*, *21*, 214-222. doi: 10.2310/7010.2006.00053

Chiou, H. H., & Hsieh, L. P. (2008). Comparative study of children's self-concepts and parenting stress between families of children with epilepsy and asthma. *Journal of Nursing Research*, *16*, 65-74.

Cummings, E. M., Davies, P., & Campbell, S. B. (2002). *Developmental psychopathology and family process : Theory, research, and clinical implications*. New York: Guilford.

Cushner-Weinstein, S., Dassoulas, K., Salpekar, J. A., Henderson, S. E., Pearl, P. L., Gaillard, W. D., & Weinstein, S. L. (2008). Parenting stress and childhood epilepsy: The impact of depression, learning, and seizure-related factors. *Epilepsy & Behavior*, *13*, 109-114. doi: 10.1016/j.yebeh.2008.03.010.

Davies, S., Heyman, I., & Goodman, R. (2003). A population survey of mental health problems in children with epilepsy. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *45*, 292-295. doi: 10.1111/j.1469-8749.2003.tb00398.x.

Devinsky, O., Vorkas, C., Barr, W. B., & Hermann, B. P. (2008). Personality disorders in epilepsy. In T. A. Pedley (Ed.), *Epilepsy: A comprehensive textbook* (pp. 2015-2112). Philadelphia: Wolters Kluwer/Lippincott Williams & Wilkins.

Elliott, I. M., Lach, L., & Smith, M. L. (2005). I just want to be normal: A qualitative study exploring how children and adolescents view the impact of intractable epilepsy on their quality of life. *Epilepsy & Behavior*, *7*, 664-678. doi: 10.1016/j.yebeh.2005.07.004

Fastenau, P. S., Shen, J., Dunn, D. W., Perkins, S. M., Hermann, B. P., & Austin, J. K. (2004). Neuropsychological predictors of academic underachievement in pediatric epilepsy: Moderating roles of demographic, seizure, and psychosocial variables. *Epilepsia*, *45*, 1261-1272. doi: 10.1111/j.0013-9580.2004.15204.x.

Fernandes, P. T., & Li, M. (2006). Percepção de estigma na epilepsia. *Journal of Epilepsy and Clinical Neurophysiology*, *12*, 207-218. doi: 10.1590/S1676-26492006000700004

Fernandes, P. T., Noronha, A. L. A., Araújo, U., Cabral, P., Pataro, R., de Boer, H. M., . . . Li, L. M. (2007). Teachers perception about epilepsy. *Arquivos de Neuropsiquiatria*, *65*, 28-34. doi: 10.1590/S0004-282X2007001000005.

Fernandes, P. T., & Souza, E. A. (2001). Identification of family variables in parents' groups of children with epilepsy. *Arquivos de Neuropsiquiatria*, *59*, 854-858. doi: S0004-282X2001000600004.

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011a). The impact of maternal depressive symptoms on health-related quality of life in children with epilepsy: A prospective study of family environment as mediators and moderators. *Epilepsia*, *52*, 316-325. doi: 10.1111/j.1528-1167.2010.02769.x.

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011b). Prevalence and trajectories of depressive symptoms in mothers of children with newly diagnosed epilepsy. *Epilepsia*, *52*, 326-336. doi: 10.1111/j.1528-1167.2010.02899.x.

Ferro, M. A., & Speechley, K. N. (2009). Depressive symptoms among mothers of children with epilepsy: A review of prevalence, associated factors, and impact on children. *Epilepsia*, *50*, 2344-2354. doi: 10.1111/j.1528-1167.2009.02276.x.

Fisher, R. S., van Emde Boas, W., Blume, W., Elger, C., Genton, P., Lee, P., & Engel, J., Jr. (2005). Epileptic seizures and epilepsy: Definitions proposed by the international league against epilepsy (ILAE) and the international bureau for epilepsy (IBE). *Epilepsia*, *46*, 470-472. doi: 10.1111/j.0013-9580.2005.66104.x.

Gannoni, A. F., & Shute, R. H. (2010). Parental and child perspectives on adaptation to childhood chronic illness: A qualitative study. *Clinical Child Psychology and Psychiatry, 15*, 39-53. doi: 10.1177/1359104509338432.

Glauser, T. A. (2004). Behavioral and psychiatric adverse events associated with antiepileptic drugs commonly used in pediatric patients. *Journal of Child Neurology, 19*, 25-38. doi: 10.1177/088307380401900104.

Hamiwka, L. D., & Wirrell, E. C. (2009). Comorbidities in pediatric epilepsy: Beyond "just" treating the seizures. *Journal of Child Neurology, 24*, 734-742. doi: 10.1177/0883073808329527.

Haneef, Z., Grant, M., Valencia, I., Hobdell, E., Kothare, S., Legido, A., & Khurana, D. (2010). Correlation between child and parental perceptions of health-related quality of life in epilepsy using the pedsql.V4.0 measurement model. *Epileptic Disorders, 12*, 275-282. doi: 10.1684/epd.2010.0344.

Herzer, M., Godiwala, N., Hommel, K. A., Driscoll, K., Mitchell, M., Crosby, L. E., . . . Modi, A. C. (2010). Family functioning in the context of pediatric chronic conditions. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics, 31*, 26-34. doi: 10.1097/DBP.0b013e3181c7226b.

Jacoby, A., & Austin, J. K. (2007). Social stigma for adults and children with epilepsy. *Epilepsia, 48*, 6-9. doi: 10.1111/j.1528-1167.2007.01391.x.

Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting Psychology, 57*, 25-30. doi: 10.1037/0022-006x.57.1.25.

Kazak, A. E. (1992). Family systems, social ecology, and chronic pediatric illness: Conceptual, methodological, and intervention issues. In J.T. Akamatsu, M. P. Stephens, S.E. Hobfoll & J.H. Crowther (Eds.), *Family health psychology. Series in applied psychology: Social issues and questions* (pp. 93-110). Washington, DC: Hemisphere Publishing Corp.

Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Navsaria, N. (2009). Families and other systems in pediatric psychology. In M Roberts (Ed.), *Handbook of pediatric psychology* (4th ed., pp. 656-671). NY: Guilford Press.

Knafl, K. A., Deatrick, J. A., Knafl, G. J., Gallo, A. M., Grey, M., & Dixon, J. K. (2013). Patterns of family management of childhood chronic conditions and their relationship to child and family functioning. *Journal of Pediatric Nursing*(0). doi: 10.1016/j.pedn.2013.03.006.

Kratz, L., Uding, N., Trahms, C. M., Villareale, N., & Kieckhefer, G. M. (2009). Managing childhood chronic illness: Parent perspectives and implications for parent-provider relationships. *Families, Systems, & Health, 27*, 303-313. doi: 10.1037/a0018114.

Kwong, K. L., Wong, S. N., & So, K. T. (2000). Parental perception, worries and needs in children with epilepsy. *Acta paediatrica, 89*, 593-596. doi: 10.1111/j.1651-2227.2000.tb00344.x.

Lach, L. M., Ronen, G. M., Rosenbaum, P. L., Cunningham, C., Boyle, M. H., Bowman, S., & Streiner, D. L. (2006). Health-related quality of life in youth with epilepsy: Theoretical model for clinicians and researchers. Part i: The role of epilepsy and co-morbidity. *Quality of Life Research: An international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*, *15*, 1161-1171.

Lv, R., Wu, L., Jin, L., Lu, Q., Wang, M., Qu, Y., & Liu, H. (2009). Depression, anxiety and quality of life in parents of children with epilepsy. *Acta neurologica Scandinavica*, *120*, 335-341. doi: 10.1111/j.1600-0404.2009.01184.x.

MacLeod, J. S., & Austin, J. K. (2003). Stigma in the lives of adolescents with epilepsy: A review of the literature. *Epilepsy & Behavior*, *4*, 112-117. doi: 10.1016/S1525-5050(03)00007-6.

Modi, A. C. (2009). The impact of a new pediatric epilepsy diagnosis on parents: Parenting stress and activity patterns. *Epilepsy & Behavior*, *14*, 237-242. doi: 10.1016/j.yebeh.2008.10.009.

Modi, A. C., Ingerski, L. M., Rausch, J. R., & Glauser, T. A. (2011). Treatment factors affecting longitudinal quality of life in new onset pediatric epilepsy. *Journal of Pediatric Psychology*, *36*, 466-475. doi: 10.1093/jpepsy/jsq114.

Oka, E., Ohtsuka, Y., Yoshinaga, H., Murakami, N., Kobayashi, K., & Ogino, T. (2006). Prevalence of childhood epilepsy and distribution of epileptic syndromes: A population-based survey in okayama, japan. *Epilepsia*, *47*, 626-630. doi: 10.1111/j.1528-1167.2006.00477.x.

Ostrom, K. J., Schouten, A., Kruitwagen, C. L., Peters, A. C., Jennekens-Schinkel, A., & Dutch Study Group of Epilepsy in, Childhood. (2001). Parents' perceptions of adversity introduced by upheaval and uncertainty at the onset of childhood epilepsy. *Epilepsia*, *42*, 1452-1460. doi: 10.1046/j.1528-1157.2001.14201.x.

Panayiotopoulos, C. P. (2007). *A clinical guide to epileptic syndromes and their treatment* (2nd ed.). London: Springer.

Pei-Fan, M. (2005). Paternal reactions to a child with epilepsy: Uncertainty, coping strategies, and depression. *Journal of Advanced Nursing*, *49*, 367-376. doi: 10.1111/j.1365-2648.2004.03300.x.

Power, T. J. (2006). Collaborative practices for managing children's chronic health needs. In L. Phelps (Ed.), *Chronic health-related disorders in children: Collaborative medical and psychoeducational interventions*. (pp. 7-23): Washington, DC, US: American Psychological Association.

Raina, P., O'Donnell, M., Schwellnus, H., Rosenbaum, P., King, G., Brehaut, J., . . . Wood, E. (2004). Caregiving process and caregiver burden: Conceptual models to guide research and practice. *BMC Pediatrics*, *4*, 1. doi: 10.1186/1471-2431-4-1.

Ramaglia, G., Romeo, A., Viri, M., Lodi, M., Sacchi, S., & Cioffi, G. (2007). Impact of idiopathic epilepsy on mothers and fathers: Strain, burden of care, worries and perception of vulnerability. *Epilepsia*, *48*, 1810-1813. doi: 10.1111/j.1528-1167.2007.01145.x.

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2007). Parents of children with enduring epilepsy: Predictors of parenting stress and parenting. *Epilepsy & Behavior*, *11*, 197-207. doi: 10.1016/j.yebeh.2007.05.001.

Rodenburg, R., Stams, G. J., Meijer, A. M., Aldenkamp, A. P., & Dekovic, M. (2005). Psychopathology in children with epilepsy: A meta-analysis. *Journal of Pediatric Psychology*, *30*, 453-468. doi: 10.1093/jpepsy/jsi071.

Rodenburg, R., Wagner, J. L., Austin, J. K., Kerr, M., & Dunn, D. W. (2011). Psychosocial issues for children with epilepsy. *Epilepsy & Behavior*, *In Press, Corrected Proof*. doi: 10.1016/j.yebeh.2011.04.063.

Rolland, J. S. (1994). *Families, illness, and disability : An integrative treatment model*. New York: BasicBooks.

Ronen, G. M., Fayed, N., & Rosenbaum, P. L. (2011). Outcomes in pediatric neurology: A review of conceptual issues and recommendations the 2010 ronnie mac keith lecture. *Developmental Medicine and Child Neurology*, *53*, 305-312. doi: 10.1111/j.1469-8749.2011.03919.x.

Shinnar, S., & Pellock, J. M. (2002). Update on the epidemiology and prognosis of pediatric epilepsy. *Journal of Child Neurology*, *17*, S4-17. doi: 10.1177/08830738020170010201.

Shore, C. P., Austin, J. K., & Dunn, D. W. (2004). Maternal adaptation to a child's epilepsy. *Epilepsy & Behavior*, *5*, 557-568. doi: 10.1016/j.yebeh.2004.04.015

Shore, C. P., Buelow, J. M., Austin, J. K., & Johnson, C. S. (2009). Continuing psychosocial care needs in children with new-onset epilepsy and their parents. *Journal of Neuroscience Nursing*, *41*, 244-250. doi: 10.1097/JNN.0b013e3181b2c721.

Shore, C. P., Perkins, S. M., & Austin, J. K. (2008). The seizures and epilepsy education (see) program for families of children with epilepsy: A preliminary study. *Epilepsy & Behavior*, *12*, 157-164. doi: 10.1016/j.yebeh.2007.10.001.

Sillanpaa, M., & Cross, J. H. (2009). The psychosocial impact of epilepsy in childhood. *Epilepsy & Behavior*, *15*, S5-10. doi: 10.1016/j.yebeh.2009.03.007.

Sillanpaa, M., & Schmidt, D. (2009). Early seizure frequency and aetiology predict long-term medical outcome in childhood-onset epilepsy. *Brain*, *132*, 989-998. doi: 10.1093/brain/awn357.

Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: Preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & Behavior*, *13*, 337-342. doi: 10.1016/j.yebeh.2008.05.001.

Thornton, N., Hamiwka, L., Sherman, E., Tse, E., Blackman, M., & Wirrell, E. (2008). Family function in cognitively normal children with epilepsy: Impact on competence and problem behaviors. *Epilepsy & Behavior, 12*, 90-95. doi: 10.1016/j.yebeh.2007.07.008.

Wagner, J. L., Sample, P. L., Ferguson, P. L., Pickelsimer, E. E., Smith, G. M., & Selassie, A. W. (2009). Impact of pediatric epilepsy: Voices from a focus group and implications for public policy change. *Epilepsy & Behavior, 16*, 161-165. doi: 10.1016/j.yebeh.2009.07.008.

Wagner, J. L., Smith, G., & Ferguson, P. (2012). Self-efficacy for seizure management and youth depressive symptoms: Caregiver and youth perspectives. *Seizure, 21*, 334-339. doi: 10.1016/j.seizure.2012.02.009.

Wallander, J. L., Thompson, R. J., Jr., & Alriksson-Schmidt, A. R. (2003). Psychosocial adjustment of children with chronic physical conditions. In M. Roberts, *Handbook of pediatric psychology* (3rd ed., pp. 141-158). NY, US: Guilford Press.

Wallander, J. L., & Varni, J. W. (1998). Effects of pediatric chronic physical disorders on child and family adjustment. *Journal of child psychology and psychiatry, and allied disciplines, 39*(1), 29-46.

Williams, J., Lange, B., Sharp, G., Griebel, M., Edgar, T., Haley, T., . . . Dykman, R. (2000). Altered sleeping arrangements in pediatric patients with epilepsy. *Clinical Pediatrics, 39*, 635-642. doi: 10.1177/000992280003901102.

Wirrell, E. C., Wood, L., Hamiwka, L. D., & Sherman, E. M. (2008). Parenting stress in mothers of children with intractable epilepsy. *Epilepsy & Behavior, 13*, 169-173. doi: 10.1016/j.yebeh.2008.02.011.

Wodrich, D. L. (2005). Disclosing information about epilepsy and type I diabetes mellitus: The effect on teachers' understanding of classroom behavior. *School Psychology Quarterly, 20*, 288-303. doi: 10.1521/scpq.2005.20.3.288.

Wodrich, D. L., Kaplan, A. M., & Deering, W. M. (2006). Children with epilepsy in school: Special service usage and assessment practices. *Psychology in the Schools, 43*, 169-181. doi: 10.1002/pits.20123.

Wu, K. N., Lieber, E., Siddarth, P., Smith, K., Sankar, R., & Caplan, R. (2008). Dealing with epilepsy: Parents speak up. *Epilepsy & Behavior, 13*, 131-138. doi: 10.1016/j.yebeh.2008.03.008.

Yong, L., Chengye, J., & Jiong, Q. (2006). Factors affecting the quality of life in childhood epilepsy in china. *Acta Neurologica Scandinavica, 113*, 167-173. doi: 10.1111/j.1600-0404.2005.00567.x.

Estudo II

Social comparison in parents of children with chronic conditions: Results from the Portuguese version of the Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure

Teresa Mendes • Carla Crespo • João Marôco • Abraham Buunk • Joan Austin

2018, Submitted

Social comparison in parents of children with chronic conditions: Results from the Portuguese version of the IOWA-Netherlands Comparison Orientation Measure

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo² • João Marôco³ •

Abraham Buunk⁴ • Joan Austin⁵

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

³Instituto Superior de Psicologia Aplicada (ISPA-IU), Lisboa, Portugal

⁴Department of Psychology, University of Groningen, Groningen, The Netherlands

⁵Indiana University School of Nursing, University of Indiana, Indianapolis, USA.

Abstract

Aim: The IOWA-Netherlands Comparison Orientation Measure (INCOM) (Gibbons & Buunk, 1999) is a measure for assessing individual differences in social comparison orientation (SCO). Despite the relevance of social comparison orientation in understanding adult patients' adjustment responses to chronic health conditions, the impact of parental social comparison processes in the context of chronic pediatric conditions remains unexplored. This study's main goal was to examine the psychometric properties of the Portuguese version of the INCOM with parents of children with chronic health conditions. **Methods:** Two samples of parents of children with chronic pediatric conditions (asthma, epilepsy, diabetes and obesity) were used (test sample, N=301; validation sample, N=192). Parents completed self-reported measures of social comparison orientation, anxiety and depression symptoms and neuroticism. **Results:** Regarding factorial validity, results supported the unidimensionality of a revised INCOM scale, comprised of nine items. Results also supported the reliability of the INCOM, and provided evidence of concurrent validity: parents with higher social comparison orientation presented more anxiety and depressive symptoms, and higher neuroticism scores, consistent with what was theoretically expected. **Conclusions:** This study opens an important door in the field of pediatric chronic conditions, supporting the inclusion of parents' social comparison orientation differences in future research.

Keywords: INCOM; social comparison orientation; pediatric chronic conditions; parents; psychometric properties

Introduction

Social comparisons are considered a central source of information concerning the self, which allow people to assess their abilities and the accuracy of their thoughts and behaviors (Gibbons & Buunk, 1999). When faced with situations of prolonged uncertainty and high stress, people show an increased tendency to make social comparisons and to relate their own situation to the situation of others who they regard as similar or who are facing similar life circumstances (Buunk et al., 2012; Gibbons & Buunk, 1999). Social comparisons can be used for self-improvement, as an aid in identifying appropriate responses to challenging situations or as an important means to increase emotional well-being (Bennenbroek, Buunk, van der Zee, & Grol, 2002). However, social comparisons can also have negative affective consequences, for instance when people perceive themselves as worse off than similar others, or fear that they may end up like others worse off than themselves (Bennenbroek et al., 2002; White, Langer, Yariv, & Welch, 2006). In the context of chronic health conditions, extensive research has shown that adult patients actively seek first-hand information from fellow patients, which impacts on how they feel about and evaluate their personal situation, namely in terms of severity, prognosis or coping ability (e.g., Arigo, Suls, & Smyth, 2012; Davison, Pennebaker, & Dickerson, 2000).

Among parents of children with pediatric chronic conditions, the examination of social comparison processes remains largely unexplored. For parents, meeting their child's special health needs over time represents a source of additional burden and uncertainty (Mendes, Crespo, & Austin, 2016). When waiting for their child's clinical appointments or while consulting educational materials, parents may actively or inadvertently engage in comparison processes when reflecting upon the seriousness of their child's current and future health status or how they are dealing with their child's illness and treatments. Although some comparisons may give hope for the future, they may also be upsetting, especially when the parents believe that their child will never do as well as those with whom the comparisons are made (Blanchard, Blalock, DeVellis, DeVellis, & Johnson, 1999; Hodges & Dibb, 2010).

Previous research shows that people in general differ in the extent to which, and the frequency with which, they compare themselves with others. This personality disposition has been labeled social comparison orientation (SCO). This notion led Gibbons and Buunk (1999) to develop the Iowa-Netherlands Comparison Orientation measure (INCOM), a short measure comprising 11 items. The original validation studies of the INCOM were performed simultaneously in the Netherlands and the USA. The alpha estimates of internal consistency of the INCOM across 22 samples ranged from .78 to .85 (Gibbons & Buunk, 1999). The validity of the measure was supported by moderate significant relationships with measures of self-

monitoring, public and private self-consciousness, neuroticism, and social anxiety in the English and Dutch language versions, as well as in a Spanish language version (Buunk, Belmonte, Peiró, Zurriaga, & Gibbons, 2005; Gibbons & Buunk, 1999). Yet, while the INCOM has been considered adequate for cross-cultural use (e.g. Buunk et al., 2005; Schneider & Schupp, 2014), there has been scant reporting of its psychometric proprieties.

One shortcoming in extant psychometric studies lies in the inconsistent findings regarding the dimensionality of the INCOM. Classic social comparison theory would suggest that SCO is a bidimensional construct encompassing the comparison of abilities and opinions (Festinger, 1954). This theoretical assumption was attested in the original validation studies of the INCOM, which did, in fact, show two latent dimensions, with abilities comprising six items and accounting for 34-38% of the total variance and opinions comprising five items and accounting for 10-14% of the total variance (Gibbons & Buunk, 1999). However, so far, INCOM subscales have rarely been considered separately, with most studies reporting the total scale score. This methodological option is partly consistent with the authors' suggestion (Buunk et al., 2005; Gibbons & Buunk, 1999) that the two subscales seem to function as two sides of the same coin, measuring the same underlying process (Gibbons & Buunk, 1999, p. 137). Addressing the dimensionality of the INCOM will allow researchers to better understand meaningful relationships with other clinical/psychosocial variables and outcomes, namely in the area of pediatric chronic health conditions.

The current study

The current study sought to examine the psychometric proprieties of the Portuguese version of the INCOM in two samples of parents of children with chronic health conditions, such as asthma, diabetes, epilepsy and obesity. The specific objectives of this study were to examine 1) the factorial validity of the INCOM, comparing two competing models: bidimensional and unidimensional; 2) the invariance of the INCOM in two samples of parents of children with chronic conditions; 3) the reliability (internal consistency) and concurrent validity of the INCOM via correlations with neuroticism and depression and anxiety symptoms; 4) the differences in SCO between groups of parents of children with different chronic health conditions.

Methods

Participants

Participants were divided in two samples. Sample 1 (test sample) was composed of 301 parents of children with asthma (29.2%), diabetes (20.9%), epilepsy (20.3%), and obesity (29.6%). The majority were mothers (88%), with ages ranging from 23 to 66 years ($M=40.03$, $SD=6.58$), most of whom were married or living with a partner (79.1%) and were of low socioeconomic status (SES) (72.8%). Regarding educational levels, 14.9% of the parents had a college degree, 22.3% had six years of schooling, and 24.9% had between nine and twelve years of schooling. The children were aged between 3 and 19 years ($M=11.16$, $SD=3.56$), were mostly male (58.8%) and had had a formal diagnosis of a chronic health condition for 4.67 years, on average ($SD=3.59$). Participants in Sample 2 (validation sample) were 192 parents (84.4% mothers) of children with chronic epilepsy. Parents' ages ranged from 29 to 58 years ($M=41.66$, $SD=5.71$); the majority were married or living with a partner (83.9%) and came from low socioeconomic backgrounds (54.7%). Regarding educational levels, 24.4% of the parents had a college degree, 21.4% had six or fewer years of schooling, and 30.8% had between nine and twelve years of schooling. Children's ages ranged between 8 and 19 years ($M=12.02$, $SD=3.20$), and there was a slightly higher percentage of males than females (52.6%). The mean length of time since the child's diagnosis was 4.46 years ($SD=3.61$). There were no significant differences between the two samples in terms of the participants' main socio-demographic characteristics (age and sex of the children and parents) or their clinical data (time since diagnosis); however, Sample 2 (epilepsy specific) had a relatively larger proportion of families with a middle/high socioeconomic background.

Procedures

Following the recommendations of Hambleton and colleagues (2004) regarding transcultural adaptation of psychological measures, the INCOM items were independently translated to Portuguese by two independent researchers who were native Portuguese speakers and who were also fluent in English, with both translations being compared to detect discrepancies. Afterwards, a native English speaker, who was also fluent in Portuguese and unaware of the original version of the instrument, performed the back translation of the Portuguese version to English. Next, the original and the back-translated versions were compared. To ensure semantic and content equivalence between both versions, some wordings

of the items were slightly altered, after considering the specificities of the Portuguese culture and language. The next step consisted of presenting this preliminary Portuguese version of the INCOM to a pilot group of 8 family caregivers (seven mothers, one father) of children with chronic conditions (epilepsy, $n=3$; diabetes, $n=2$; asthma, renal condition, cardiac condition, $n=1$ each). Parents were questioned regarding the clarity and comprehensibility of the items. This procedure resulted in minor changes to the wording, thus enabling agreement to be reached upon a final version to be administered in the Portuguese context.

The criteria for inclusion in the present study were as follows: (1) parent of a child of 19 years of age or younger with a diagnosis of asthma, epilepsy, obesity, or diabetes for at least six months; (2) child's absence of major developmental delays; and (3) parent referred to as the primary care provider for health-related issues. Participants were recruited consecutively at the pediatric outpatient services of four Portuguese public hospitals. Formal authorizations were obtained from the hospitals' Boards of Directors. Potential participants were invited to take part while waiting for their child's scheduled medical appointment, provided they met the inclusion criteria. Between January 2012 and February 2013 sample collection included parents of children with any of the four chronic conditions considered (Sample 1), and from March 2013 to September 2014 it was limited to parents of children with epilepsy (Sample 2). A researcher explained the study's aims and procedures to the families, and informed consent was obtained from those who agreed to participate. Parents completed self-reported measures in a room designated for research purposes. Clinical information was self-reported by the parents and, if necessary, further checked in the medical files.

Measures

The SCO was assessed using the Portuguese version of the INCOM (Gibbons & Buunk, 1999). The INCOM comprises 11 items in which the participants state to what extent they agree with statements concerning social comparison habits, ranging from 1 (I disagree strongly) to 5 (I agree strongly). It includes items such as "I often compare myself with others with respect to what I have accomplished in life," and "I always like to know what others in a similar situation would do". The two reversed items ("I am not the type of person who compares often with others" and "I never consider my situation in life relative to that of other people") were recoded before running the analyses. The higher the total score, the more the person compares him- or herself with others and is more affected by social comparisons (Gibbons & Buunk, 1999).

Neuroticism was assessed using the neuroticism subscale of the Portuguese version of the Eysenck Personality Questionnaire (EPQ) (Eysenck & Eysenck, 1975). This consists of 18 items (e.g., "Are you a worrier?") with a dichotomous type of response ("yes" or "no").

Individuals high in neuroticism tend to be moody and worried and to experience guilt, loneliness, and sadness. In the present sample, the Cronbach's alpha coefficient value was .86.

Symptoms of depression and anxiety were evaluated using the Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS; Zigmond & Snaith, 1983), consisting of two subscales: anxiety ($n=7$ items; e.g., "I am restless and can't keep still") and depression ($n=7$ items; e.g., "I feel as though I am slowed down"). Each item is answered on a 4-point scale, ranging from 0 (not at all/only occasionally) to 3 (most of the time/a great deal of time). Higher scores represent higher levels of symptoms. In the present sample, the Cronbach's alpha coefficient values were .83 (anxiety) and .77 (depression).

The socioeconomic status (SES) was determined using a classification system for the Portuguese context, based on parents' jobs and educational level (Simões, 1994).

Data analyses

Data analyses were performed using IBM-SPSS Statistics v.21.0 (SPSS an IBM company, Chicago, IL, USA) and AMOS 21.0. While Sample 1 was used in all the statistical analyses performed, Sample 2 was used for cross-validation purposes only. Psychometric sensitivity of the items was accepted for skewness and kurtosis absolute values smaller than three and seven, respectively (Marôco, 2014). In order to analyze the factorial validity of the INCOM, two alternative models – unidimensional and bidimensional – were examined against each other using confirmatory factor analysis (CFA) procedures, with Maximum Likelihood (ML), after assessing normality assumptions (Brown, 2015). The main goodness-of-fit indexes were considered to evaluate the overall model fit: χ^2 statistics, Comparative Fit Index (CFI) and Root Mean Square Error of Approximation (RMSEA), with its associated 90% Confidence Interval and the Standardized Root Mean Square Residuals (SRMR) (Byrne, 2010). Criteria for good model fit were a non-significant χ^2 ($p>.05$), $CFI \geq .95$, $RMSEA \leq .06$ and $SRMR \leq .08$ and criteria for acceptable fit were $CFI \geq .90$, and $RMSEA$ and $SRMR \leq .10$ (Hu & Bentler, 1999; Marôco, 2014). The fit of the original measurement models was improved (i.e., respecified) following modification indices (MI) greater than 11, $p<.001$ and when theoretically justifiable (Byrne, 2010). The χ^2 difference test was used to calculate significant improvements over competing models (Brown, 2015). In the examination of the local fit of the model values $\geq .50$ of the standardized factor loading (λ) of each item with its respective factor were regarded as significant (Marôco, 2014). The convergence of items into the proposed factors was evaluated with the factor's average variance extracted (AVE) and composite reliability (CR), as described by Fornell and Larcker (1981). AVE greater than .50 and CR greater than .70 were indicative of an item's convergence (Brown, 2015). Evidence for a factor's discriminant validity was found when the

squared Pearson correlation between factors was larger than the AVE for each factor (Fornell & Larcker, 1981). Additionally, Pearson product-moment correlation coefficients were calculated between the INCOM and measures of Neuroticism, depression, and anxiety symptoms. Regarding reliability, two estimates were considered: Cronbach’s alpha coefficient and Composite Reliability (CR), the latter being regarded as a more robust estimate for latent factor models with correlated error terms and unequal factor loadings items (non-tau equivalent) (Farrell, 2010; Raykov, 1998). In order to verify the stability of the factor solution elected as most adequate, cross-validation was performed in a second independent sample (Byrne, 2010).

Results

Factorial Validity

The data from both Sample 1 and Sample 2 were first checked for normality (see Table 1). The analysis of skewness and kurtosis’ absolute values indicated that the items did not pose a considerable bias to normal distribution that would recommend against using ML for estimation $Sk = |-1.50 - 0.47|$; $Ku = |-1.18 - 4.20|$.

Table 1 - Descriptive statistics of the items of the INCOM

| Items | M | Me | Mo | SD | Sk | Ku | Min-Max |
|---|-------------|----------|----------|-------------|--------------|--------------|------------|
| 1. compare what I have accomplished in life | 2.55 | 2 | 2 | 1.08 | 0.23 | -0.97 | 1-5 |
| 2. interest in what others think | 2.82 | 3 | 2 | 1.10 | 0.08 | -1.18 | 1-5 |
| 3. how I do things compared with others | 2.92 | 3 | 2 | 1.09 | 0.13 | -0.98 | 1-5 |
| 4. how loved ones are doing compared to others | 3.00 | 3 | 4 | 1.10 | -0.07 | -0.98 | 1-5 |
| 5. what others in a similar situation do | 3.13 | 3 | 4 | 0.97 | -0.29 | -0.76 | 1-5 |
| 6. don’t compare myself with others ^a | 2.36 | 2 | 2 | 1.05 | 0.73 | -0.11 | 1-5 |
| 7. compare what I have done with how others have done | 2.62 | 2 | 2 | 0.99 | 0.29 | -0.71 | 1-5 |
| 8. try to find out what others with similar problems think | 3.34 | 4 | 4 | 0.95 | -0.58 | -0.44 | 1-5 |
| 9. like talking about mutual opinions and experiences with others | 3.95 | 4 | 4 | 0.73 | -1.50 | 4.20 | 1-5 |
| 10. never consider my situation in life relative to that of others^a | 2.77 | 3 | 2 | 1.09 | 0.22 | -0.80 | 1-5 |
| 11. compare how am I doing socially | 2.41 | 2 | 2 | 1.03 | 0.47 | -0.57 | 1-5 |

Notes. ^a Reverse coded item. Ability items: 1, 3, 4, 6, 7 and 11 (not in bold); Opinion items: 2, 5, 8, 9, 10 (in bold).

Using Sample 1 we began by fitting a two-factor model (Model 1). Results showed a poor fit ($\chi^2(43) = 225.32, p < .001, CFI = .79, RMSEA = .12; SRMR = .09$) (See Table 2). All factor loadings were statistically significant ($p < .01$), however, items 6 and 10, the two reversed coded items, were below the recommended threshold of .50. Modification indices (M.I.) were examined and substantial residual correlations were found: items 1 with 11 (M.I.=36.79); 6 with 10 (M.I. =

33.95); 3 with 2 (M.I.=25.67), and 8 with 9 (M.I.=23.72). Following Byrne (2010), only pairs of errors of items that loaded on the same factor and shared content overlap, were allowed to correlate. The respecified model, correlating error terms of items 1 with 11, and 8 with 9, showed acceptable fit to the data ($\chi^2(41) = 135.87$, $p < .001$; CFI= .89, RMSEA= .088 and SRMR=.069), which was significantly better than the original model ($\Delta\chi^2(2)=89.45$, $p < .001$); however, problems of local fit - low standardized factorial weights (SFW) of specific items (6, 10 and 9) - persisted. At the same time, the two-factor solution suggested discriminant validity issues, because the correlation between the latent factors was above .80 ($r_{ab,op}=.88$) (Brown, 2015) and the average variance extracted (AVE) of each factor was greater than the square of correlation between factors ($AVE_{ability} = .35$; $AVE_{opinion} = .23$) $< r^2 = .77$ (Fornell & Larcker, 1981). Next, we tested the unidimensional model of the INCOM (model 2). Goodness-of-fit indices showed poor fit indicators ($\chi^2(44) = 267.38$, $p < .001$; CFI= .74; RMSEA= .13 and SRMR=.09). All the standardized factor loadings were significant, however, items 6, 9, and 10 had factorial weights below the recommended threshold. Following examination of M. I., errors belonging to items 1 and 11, 8 and 9, and 6 and 10 were correlated. The respecified model showed a good fit ($\chi^2(40) = 103.33$, $p < .05$, CFI= .93, RMSEA=.07 and SRMR=.06), which was significantly better than the original model ($\Delta\chi^2(2)=89.45$, $p < .001$); however, problems with the low factor loadings of items 6, 9, and 10 persisted.

In third place, we tested the possibility of developing a better fitting unidimensional model, by deleting problematic items. The two reverse-coded items were prime candidates for deletion, given that the covariation between their error terms most likely reflects not the influence of a distinct latent dimension, but an artifact of response styles associated with the negative wording of the items (Brown, 2015). We decided to retain item 9 because its deletion caused a substantive drop in the goodness-of-fit indices ($\Delta\chi^2(6)=5.376$, $p > .05$). We performed a CFA of the unidimensional INCOM composed of 9 items (model 3). After correlating pairs of error terms (1 and 11; 8 and 9), goodness-of-fit indices of the respecified model indicated an acceptable fit to the data ($\chi^2(25) = 68.199$, $p < .001$; CFI= .94; RMSEA= .076 (.055-.098) and SRMR=.055). The factor loadings for these items ranged from .49 to .72, except for item 9. The CR value calculated from the factor loadings was .804, and the Cronbach's alpha was .81. Comparing both solutions (model 2 respecified and model 3 respecified), the latter proved to have a significantly better fit ($\Delta\chi^2(15)=35.331$, $p < .05$)

Table 2 - Goodness of fit indices and standardized factorial weights of the items of the INCOM in each factorial model

| Factorial models under comparison | χ^2 | df | p | CFI | SRMR | RMSEA | RMSEA 90% CI | | Standardized factor loadings of the items with the corresponding latent factor | | | | | | | | | | |
|-----------------------------------|----------|----|------|-----|------|-------|--------------|-----|--|-----|-----|-----|-----|-----|-----|-----|-----|-----|-----|
| | | | | | | | Lo | Hi | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 | 8 | 9 | 10 | 11 |
| Model 1. | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| 11 items two-factor model | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| Original model | 225.32 | 43 | <.01 | .79 | .092 | .12 | .10 | .13 | .68 | .45 | .61 | .60 | .59 | .28 | .68 | .76 | .49 | .27 | .76 |
| Respecified model | 135.87 | 41 | <.00 | .89 | .069 | .088 | .07 | .10 | .53 | .51 | .67 | .61 | .61 | .26 | .72 | .61 | .30 | .27 | .63 |
| Model 2. | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| 11 items one-factor model | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| Original model | 267.38 | 44 | <.00 | .74 | .09 | 0.13 | .11 | .14 | .61 | .48 | .65 | .60 | .54 | .28 | .71 | .53 | .29 | .28 | .68 |
| Respecified model | 103.33 | 40 | <.05 | .93 | .06 | .07 | .05 | .09 | .51 | .51 | .58 | .60 | .57 | .24 | .71 | .55 | .27 | .25 | .61 |
| Model 3. | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| 9 items one-factor model | | | | | | | | | | | | | | | | | | | |
| Original model | 200.12 | 27 | <.00 | .78 | .089 | .146 | .13 | .17 | .58 | .49 | .66 | .59 | .55 | | .71 | .53 | .30 | | .67 |
| Respecified model | 68.20 | 25 | <.05 | .94 | .05 | .076 | .05 | .09 | .49 | .52 | .69 | .59 | .57 | | .72 | .54 | .28 | | .60 |

Notes. Model 1 original: Ability factor (items 1, 3, 4, 6, 7, 11); Opinion factor (items 2, 5, 8, 9, 10); Model 1 respecified: residual variances of items 1 with 11 and 8 with 9 were correlated; Model 2 respecified : residual variances of items 1 with 11 and 6 with 10 were correlated; Model 3 respecified: residual variances of items 1 with 11 and 8 with 9 were correlated; CFI: Comparative Fit Index; RMSEA: Root Mean Square Error of Approximation; SRMR: Standardized Root Mean Square Error; All standardized regression weights of factor loadings were significant ($p < .001$).

INCOM invariance across samples

Statistic stability of the best fitting model (model 3, respecified) was further assessed by a multigroup analysis, comparing the estimates in the test sample ($n=301$) with those obtained in another independent validation sample ($n=192$). Chi-square differences between the models with equally constrained estimates and free estimates revealed no statistically significant differences in either the measurement weights ($\Delta\chi^2(8)=9.366, p=.312$) or the structural covariances ($\Delta\chi^2(9)=9.868, p=.361$) (Byrne, 2010).

Relationships between INCOM and other constructs

The results depicted in Table 3 show that INCOM scores presented weak to moderate positive correlations with the scales of neuroticism, depression, and anxiety, which are in line with previous evidence and as theoretically expected. These correlations support the concurrent validity of the INCOM, and partial overlap of INCOM with Neuroticism, Depression and Anxiety.

Table 3 - Descriptive statistics and Pearson correlations between social comparison orientation and other variables

| Variables | M | SD | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 |
|--------------------------------------|-------|-------|-------|-------|-------|-------|-------|-------|---|
| 1. Social comparison orientation | 2.98 | .64 | 1 | | | | | | |
| 2. Neuroticism | .44 | .26 | .22** | 1 | | | | | |
| 3. Depression symptoms | .73 | .50 | .12* | .48** | 1 | | | | |
| 4. Anxiety symptoms | 1.18 | .54 | .19** | .63** | .64** | 1 | | | |
| 5. Parents' age | 40.03 | 6.58 | -.011 | -.003 | .065 | .045 | 1 | | |
| 6. Family's SES ¹ | - | - | .044 | -.14* | -.12* | -.13* | .35** | 1 | |
| 7. Time since child's diagnosis (mo) | 55.91 | 43.15 | -.026 | .018 | .014 | .03 | .12* | -.026 | 1 |

Notes. * $p<.05$; ** $p<.01$; ¹ SES variable was dummy-coded. Low SES was coded for 0; Medium/high SES was coded for 1.

SCO among parents of children with CHC: Mean comparisons

Prior to examining differences in SCO scores between parents of children with asthma, diabetes, epilepsy and obesity, these four groups were compared at the level of their major socio-demographic and clinical characteristics, using Chi-square tests and ANOVAs. No significant differences were found, except for SES ($\chi^2(3)=19.71, p<.001$) and length of time since

diagnosis ($F(3,292)=9.41, p<.001$). Families with a child with obesity showed a higher proportion of low SES and children with asthma had been diagnosed for a significantly longer period of time, in comparison with all other groups. Next, we performed an ANCOVA, controlling for SES and time since diagnosis, with SCO as the dependent variable and condition group as the independent variable. No significant multivariate effect for condition group was found ($F(3, 290)=.24, p=.868$).

Discussion

Parents very much need and want information about their child's chronic conditions. However, examination of the social comparison processes, namely the role played by individual differences in parents' SCO in the context of these families remains largely unexplored. This study examined the psychometric properties of the Portuguese version of the INCOM in parents of children with chronic conditions. Particular emphasis was placed on examination of the factorial structure of the INCOM.

Contrary to previous studies where a straightforward two-factor solution was found (e.g., Gibbons & Buunk, 1999; Schneider & Schupp, 2014), the results from our sample of parents of children with chronic conditions suggested an overlap between the previous "abilities" and "opinions" factors. Grounded on theoretical and empirical evidence, the examination of the discriminant validity between these two factors challenged the acceptability of the two-factor solution. The CFA studies supported the adoption of a single-factor solution, with exclusion of the two reverse-coded items. The negative formulation of the two reversed items might have hindered understanding, thus preventing the use of the possible range of response values. These results were replicated in a second validation sample. The difficulties in the global fit of a two-factor structure of the INCOM were also reported in cross-cultural adaptation studies conducted in Spain and Germany (Buunk et al., 2005; Schneider & Schupp, 2014). In both cases, when adult samples were used, the difficulties arose with the two reverse-coded items. It is possible that the inconsistencies in the results related to the INCOM dimensionality, may be related to specific characteristics of the samples, such as mean age. In fact, studies in support of the original two-factor structure of the INCOM (Gibbons & Buunk, 1999) were all conducted in populations of older adolescents and college students, with the exception of Schneider and Schupp's research. The argument that people in different age groups may posit themselves differently when faced with the precise wording of the INCOM items is in line with past research showing that older people tend to compare their abilities and opinions with others less often than younger people do (Callan, Kim, & Matthews, 2015; Schneider & Schupp, 2014). In future

research, it might be important to clarify the motives behind social comparison activity, at various developmental stages, and their correlates in terms of social comparison activity.

In terms of reliability, our results provide support for the INCOM as a reliable measure to use with this population of parents. Regarding concurrent validity, our results showed that parents with higher SCO presented more anxiety and depressive symptoms, and higher neuroticism scores. The direction and strength of the correlations were as expected and consistent with previous research (e.g., Buunk et al., 2005; Gibbons & Buunk, 1999; Schneider & Schupp, 2014; White et al., 2006).

In our study, no differences were found in SCO between parents of children with different chronic conditions. This result suggests that SCO is an individual difference characteristic rather than a situation-dependent characteristic.

The findings of this study should be interpreted in the context of some limitations. The convenience sampling method used in the data collection, restricted to four pediatric chronic conditions, although in accordance with the relative prevalence of each of these conditions, may have prevented representativeness of all families, potentially limiting external validity, namely to other chronic conditions. Secondly, the majority of our sample was composed of mothers from a low socioeconomic background. Thirdly, sample restrictions precluded examination of the invariance of the INCOM across child's chronic condition and caregiver's sex. Future research should address these shortcomings and a more diverse population of parents of children with chronic health conditions should be considered.

In conclusion, the results from the Portuguese cross-cultural adaptation of the INCOM with two samples of parents of children with chronic conditions supported the factorial validity, reliability and concurrent validity of the measure, comprising 9 items, measuring a unidimensional construct: SCO. These results open an important door in the field of pediatric chronic conditions research, enabling the consideration of parents' SCO differences in future research, and suggesting possible links with parents' psychological adjustment outcomes. Parents, especially those with higher SCO, may need assistance in order to use social comparison information more constructively. In the development of materials (informative leaflets, videos, internet sites) or in the design of practical interventions (e.g., awareness campaigns, self-help groups), health professionals face the challenge of optimizing comparative processes in order to promote adjustment of family caregivers.

References

- Arigo, D., Suls, J. M., & Smyth, J. M. (2012). Social comparisons and chronic illness: Research synthesis and clinical implications. *Health Psychology Review*, 1-61. doi: 10.1080/17437199.2011.634572
- Bennenbroek, F. T., Buunk, B. P., van der Zee, K. I., & Grol, B. (2002). Social comparison and patient information: What do cancer patients want? *Patient Education & Counseling*, 47(1), 5-12.
- Brown, T. (2015). *Confirmatory factor analysis for applied research* (Second Edition ed.). New York: Guilford Press.
- Buunk, A. P., Belmonte, J., Peiró, J. M., Zurriaga, R., & Gibbons, F. X. (2005). Diferencias individuales en la comparación social: Propiedades de la escala española de orientación hacia la comparación social. *Revista Latinoamericana de Psicología*, 37(3), 561-579.
- Buunk, A. P., Bennenbroek, F. T., Stiegelis, H. E., van den Bergh, A. C., Sanderman, R., & Hagedoorn, M. (2012). Follow-up effects of social comparison information on the quality of life of cancer patients: The moderating role of social comparison orientation. *Psychology and Health*, 27(6), 641-654. doi: 10.1080/08870446.2011.613994
- Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with amos: Basic concepts, applications, and programming* (2nd ed.). New York, NY US: Routledge/Taylor & Francis Group.
- Callan, M., Kim, H., & Matthews, W. (2015). Age differences in social comparison tendency and personal relative deprivation. *Personality & Individual Differences*, 87, 196-199. doi: 10.1016/j.paid.2015.08.003
- Davison, K. P., Pennebaker, J. W., & Dickerson, S. S. (2000). Who talks? The social psychology of illness support groups. *American Psychologist*, 55(2), 205-217. doi: 10.1037/0003-066x.55.2.205
- Eysenck, H. I., & Eysenck, S. B. (1975). *Eysenck personality inventory manual*. London: Hodder & Stoughton.
- Farrell, A. M. (2010). Insufficient discriminant validity: A comment on Bovee, Pervan, Beatty, and Shiu (2009). *Journal of Business Research*, 63(3), 324-327. doi: 10.1016/j.jbusres.2009.05.003
- Festinger, L. (1954). A theory of social comparison processes. *Human Relations*, 7, 117-140.
- Fornell, C., & Larcker, D. F. (1981). Evaluating structural equation models with unobservable variables and measurement error. *Journal of Marketing Research* 18(1), 39-50.

Gibbons, F. X., & Buunk, B. P. (1999). Individual differences in social comparison: Development of a scale of social comparison orientation. *Journal of Personality & Social Psychology*, 76(1), 129-142.

Hambleton, R. K., Merenda, P. F., & Spielberger, C. D. (2004). *Adapting educational and psychological tests for cross-cultural assessment*: Routledge.

Hodges, L., & Dibb, B. (2010). Social comparison within self-help groups: Views of parents of children with duchenne muscular dystrophy. *Journal of Health Psychology*, 15(4), 483-492. doi: 10.1177/1359105309355491

Hu, L., & Bentler, P. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling*, 6(1), 1-55.

Marôco, J. (2014). *Análise de equações estruturais: Fundamentos teóricos, software e aplicações* (2nd ed.). Pero Pinheiro: Report Number.

Mendes, T.P., Crespo, C.A. , & Austin, J.K. (2016). Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family condition management. *Journal of Child and Family Studies*, 1-12. doi: 10.1007/s10826-016-0447-0

Raykov, T. (1998). Coefficient alpha and composite reliability with interrelated nonhomogeneous items. *Applied Psychological Measurement*, 22(4), 375-385.

Schneider, S., & Schupp, J. (2014). Individual differences in social comparison and its consequences for life satisfaction: Introducing a short scale of the iowa-netherlands comparison orientation measure. *Social Indicators Research*, 115(2), 767-789. doi: 10.1007/s11205-012-0227-1

Simões, M. (1994). *Raven's progressive matrices: Aferition studies for the portuguese population*. Unpublished doctoral dissertation, Universidade de Coimbra, Coimbra.

White, J. , Langer, E. , Yariv, L., & Welch, J. (2006). Frequent social comparisons and destructive emotions and behaviors: The dark side of social comparisons. *Journal of Adult Development*, 13(1), 36-44. doi: 10.1007/s10804-006-9005-0

Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). Hospital anxiety and depression scale. *Acta Psychiatrica Scandinavia*, 67(6), 361-370. doi: 10.1037/t03589-000

Estudo III

Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family's condition management

Teresa Mendes • Carla Crespo • Joan Austin

2016, *Journal of Child and Family Studies*, 25(9), 2820-2831

doi: 10.1007/s10826-016-0447-0

Family cohesion and adaptation in pediatric chronic conditions: The missing link of the family's condition management

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo² • Joan Austin³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

³Indiana University School of Nursing, University of Indiana, Indianapolis, USA.

Abstract

The quality of family functioning has been considered an important predictor of adaptation in children with chronic conditions and their parents. Previous research suggests that beyond general family functioning, the specific experience of the family's condition management is paramount for understanding family members' adaptation. This study's first goal was to compare family functioning and parents' and children's adaptation outcomes across four chronic conditions: asthma, diabetes, epilepsy, and obesity. Secondly, we explored the mediating role of family life difficulties and parental mutuality, as two potential paths through which family cohesion is linked to family members' adaptation. A total of 263 parents of children (3-19 years old) with asthma ($n=77$), obesity ($n=79$), epilepsy ($n=52$) and diabetes ($n=55$) completed self-report measures of family cohesion, family life difficulty, parental mutuality, anxiety and depressive symptoms, and their children's health-related quality of life (HrQoL). The results showed that families of children with diabetes, obesity, and epilepsy were at higher risk of experiencing family difficulties and children's deteriorated HrQoL when compared to families of children with asthma. With regard to the links among study variables, although family cohesion had both a direct and indirect relationship with parental depressive symptoms, its links with parental anxiety symptoms and children's HrQoL were only indirect, through family life difficulty. These associations were consistent across the four clinical groups. These findings emphasize the relevance of family-centered interventions aimed at promoting family cohesion, parents' mutuality, and effective coping with the demands of pediatric chronic conditions.

Keywords: Family cohesion; family management; pediatric chronic conditions; Children and parents; adaptation.

Introduction

Research across pediatric chronic conditions has established the importance of family functioning for the adaptation of children with chronic conditions and their parents (Drotar, 1997; Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009). Previous studies have mainly examined the general features of family functioning, such as family cohesion, family environment, family resources and demands, and satisfaction with family relationships (e.g. Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011; Herzer et al., 2010). Nonetheless, a growing body of evidence shows that the specific experiences and practices of the family's management of the condition are paramount for understanding family members' adaptation (Knafl et al., 2013; McQuaid, Walders, Kopel, Fritz, & Klinnert, 2005; Modi et al., 2012).

Family cohesion has been considered a central dimension of family functioning. Cohesion refers to the support that family members provide to one another as well as the sense of involvement and closeness among them (Moos & Moos, 1986). Previous studies have consistently shown that more supportive and cohesive family environments predict higher levels of adherence and better adjustment outcomes of both children with chronic conditions and their parents, specifically for epilepsy (Ferro et al., 2011; Wu, Follansbee-Junger, Rausch, & Modi, 2014), diabetes (Anderson, 2004), and asthma (Crespo, Carona, Silva, Canavarro, & Dattilio, 2011). Conversely, higher levels of family conflict, parental stress or parental behaviors of overprotection and control consistently predict lower levels of children's health related quality of life (HrQoL) and the presence of behavioral and emotional problems in children (Wu et al., 2014).

As medical treatments have become more effective in reducing illness-related symptoms and longer-term complications over the last decades, health care delivery approaches have moved toward an increased expectation of family members' involvement in the management of pediatric chronic conditions (Modi et al., 2012). As a result, family caregivers have become progressively more responsible for managing multicomponent treatment regimens, which may include taking prescribed medications, activity restrictions, dietary changes, symptom monitoring, and making important, on-the-spot medical decisions (Fiese, Winter, Anbar, Howell, & Poltrock, 2008). For families, meeting the needs of a child with a chronic condition over time creates added challenges and concerns (Cohen, 1999; Rolland, 1994). Treatment regimens may require changes in the roles and responsibilities within the family system and may interfere with the daily life patterns and routines of individual family members and families as a whole (Fiese et al., 2008). Furthermore, family members must learn to communicate and work together to meet medical demands and to make decisions regarding their child's health care (Knafl et al., 2013).

Families of children with chronic conditions often experience difficulties implementing treatment recommendations (Cohen, 1999; McQuaid et al., 2005). Mastering treatment regimens, which are often complex and time consuming, may place a substantial burden on families who are already dealing with the developmental tasks of childhood and adolescence (Fiese et al., 2008; Rolland, 1994). Although most families attempt to normalize family life and reduce the intrusion of the condition it is common for parents to feel overwhelmed by the everyday care that their child's condition requires, and some parents may even doubt their ability to do so (Cohen, 1999).

Parents represent a primary source of support (instrumental, emotional) for each other. Parental mutuality refers to the ability of parents to work as a collaborative team and is considered a strong predictor of the successful adaptation of family members (Knafl et al., 2011; Rolland, 1994; Wysocki & Gavin, 2006). Although previous studies show that mothers tend to assume most responsibility for disease management, there is considerable variability among families in terms of paternal involvement (Cohen, 1999; Wysocki & Gavin, 2006). Prior research in pediatric diabetes showed that paternal involvement was associated with better quality of life of children as well as improved indicators of maternal psychological functioning and marital satisfaction (Wysocki & Gavin, 2006). Conversely, increases in role strain within the family are frequently associated with decreases in marital satisfaction, which, in turn, influence maternal adjustment (Belsky, 1984). Moreover, according to family systems theory, avoiding inter-parental conflict by excessively concentrating on or worrying about the child's condition may be extremely stressful for the child (Cohen, 1999).

Despite recent research in family functioning within the context of pediatric chronic conditions, a number of methodological challenges persist. The concern with the assessment of family variables led Alderfer et al. (2008) to categorize family measures into three broad areas: (1) general family functioning, (2) dyadic family relationships, and (3) family in the context of a chronic medical condition. Whereas general and dyadic measures focus on the global (e.g., cohesion, organization) or the relational dimensions (e.g., parent-child relationship) of family functioning, showing suitability for families with and without childhood chronic conditions, the third group of measures is specific to families in the context of a chronic condition, with some being applicable across pediatric chronic conditions, while others are condition-specific.

Studies that compare family functioning across pediatric chronic conditions are scarce. These studies may be particularly helpful for health care providers and political decision makers by allowing the identification of high-risk populations and by clarifying the specificities and commonalities of the impact of distinct chronic conditions (Drotar, 1997). One of the few exceptions, Herzer et al. (2010), compared the quality of general family functioning across five pediatric chronic conditions and a community sample with healthy children using a general family

functioning measure. Grounded in Rolland's (1994) psychosocial typology of illness, Herzer et al. (2010) hypothesized that family functioning would be affected differently based on the specific characteristics of a child's chronic condition; however, no significant differences in family functioning were found in this study. An important point is that research focusing exclusively on general family functioning may have limited power to identify family processes that significantly affect children's and parents' adjustment outcomes in the specific context of a chronic condition (Drotar, 1997; Knafl et al., 2011). Recently, a new family measure that assesses strengths and difficulties related to the family management of the pediatric chronic condition has been developed. The Family Management Measure (FaMM)(Knafl et al., 2011) departs from a non-categorical approach (Stein & Jessop, 1982), that stresses the fact that independently of the condition, families with children with a chronic pediatric condition share common psychosocial needs and challenges, and is applicable across pediatric conditions and child developmental stages (Knafl et al., 2011).

Family environment functions as a key to successful pediatric chronic condition management at home (Fiese et al., 2008; Kazak et al., 2009). Previous research has shown that family cohesion supports management behaviors, specifically by promoting the establishment of regular family routines related to treatment and medication uptake (Crespo et al., 2011; Fiese et al., 2008). However, there is still a limited amount of research testing specific pathways of family influence, such as how whole-family processes influence the adjustment outcomes (e.g., psychosocial adjustment/HrQoL) of parents and their children with chronic conditions. Mapping how families function in the context of a pediatric chronic condition and combining both general and condition management-related measures may provide a fine-tuned assessment of these influence pathways and may have important clinical and research implications.

Grounded in the socio-ecological framework of adaptation and change in the context of pediatric chronic conditions which assumes the interrelatedness between family factors, illness and individual psychosocial outcomes (Kazak et al., 2009), our study's had two major aims. First, we aimed to compare the perceptions of family cohesion, family condition management (family life difficulty and parental mutuality) and children's and parents' adaptation outcomes across four of the most common chronic pediatric conditions: asthma, diabetes, epilepsy and obesity. Asthma is a leading cause of emergency department visits and activity restriction for children and adolescents, and its' worldwide prevalence rates are over 10% (Pearce et al., 2007). Regarding pediatric diabetes, increasing prevalence rates are being reported in western countries, along with associated health care costs and psychosocial impacts (Passa, 2002). Epilepsy is the most common neurological disorder in pediatric age and previous research shows that children with epilepsy are at increased risk of poor psychological and social adjustment, when compared to children with other chronic conditions (Oka et al., 2006; Rodenburg, Stams,

Meijer, Aldenkamp, & Dekovic, 2005). Obesity in children and adolescents has become dramatically prevalent during the past two decades, carrying a number of health consequences, as well as risk factors (Steele & Janicke, 2013). Given the scarce literature on comparisons across pediatric chronic conditions, no specific predictions were made regarding the direction of these differences. Our second aim was to examine the direct and indirect effects of family cohesion on parents' perceptions of children's HrQoL and parents' anxious and depressive symptoms via family life difficulty and parental mutuality, two specific aspects of family condition management. Adopting a contextual approach, we proposed that daily family condition management is embedded in overall family functioning and can be considered a window to more global family functioning (Crespo et al., 2011). We hypothesized that higher family cohesion would be linked to better HrQoL in children and lower levels of anxious and depressive symptoms in parents through its links with family condition management, specifically, a negative link with family life difficulty and a positive link with parental mutuality. Additionally, we examined whether these links remained invariant across the four pediatric chronic conditions under consideration. However, given the exploratory nature of this goal, we made no predictions in this regard.

Table 1 - Sociodemographic and clinical characteristics of parents and their children with chronic conditions

| Variables | Global sample (N=263) | Asthma ^a (n=77) | Diabetes ^d (n=55) | Epilepsy ^e (n=52) | Obesity ^o (n=79) | Condition Effect | Pairwise comparisons |
|--------------------------------------|--------------------------|-------------------------------|---------------------------------|---------------------------------|--------------------------------|---|-------------------------|
| Parents | | | | | | | |
| Sex, n (%) | | | | | | | |
| Female | 227 (85.3) | 64 (83.1) | 47 (85.5) | 44 (84.6) | 72 (91.1) | $\chi^2(3, N=263)=2.38, p=.497$ | |
| Male | 36 (14.7) | 13 (16.9) | 8 (14.5) | 8 (15.4) | 7 (8.9) | | |
| Age (years), M (SD) | 39.59 (5.9) | 40.24 (7.5) | 41.04 (6.5) | 39.76 (5.9) | 38.92 (5.7) | $F(3, 255)=1.24, p=.30,$ $\eta^2_p=.014$ | |
| Educational Level, n (%) | | | | | | | |
| ≤ 6 years | 69 (22.4) | 19 (24.7) | 8 (14.5) | 13 (25.0) | 19 (24.1) | $\chi^2(18, N=263)=20.94, p=.28$ | |
| Between 7 and 9 years | 89 (33.8) | 31 (40.1) | 18 (32.7) | 14 (27.0) | 26 (32.9) | | |
| Between 10 and 12 years | 77 (29.3) | 18 (23.4) | 16 (29.1) | 19 (26.5) | 24 (30.4) | | |
| College degree | 38 (14.4) | 9 (11.7) | 13 (23.6) | 6 (11.5) | 10 (12.7) | | |
| Family Structure, n (%) | | | | | | | |
| Intact | 211 (80.2) | 57 (74.0) | 38 (69.1) | 42 (80.8) | 58 (73.4) | $\chi^2(6, N=263)=13.48, p=.142$ | |
| Reconstructed | 31 (11.8) | 10 (13.0) | 5 (9.1) | 6 (11.5) | 7 (8.9) | | |
| Multigenerational | 20 (7.6) | 3 (3.9) | 6 (10.9) | 0(0) | 11 (13.9) | | |
| Socioeconomic Status, n (%) | | | | | | | |
| Low | 189 (71.9) | 59 (76.6) | 32 (58.2) | 31 (59.6) | 67 (84.8) | $\chi^2(3, N=263)=16.36, p=.001$ | o*<a, d, e |
| Medium/High | 74 (28.1) | 18 (23.4) | 23 (41.8) | 21 (40.4) | 12 (15.2) | | |
| Children | | | | | | | |
| Sex, n (%) | | | | | | | |
| Female | 106 (40.3) | 25 (32.5) | 23 (41.8) | 25 (48.1) | 33 (41.8) | $\chi^2(3, N=263)=3.39, p=.340$ | |
| Male | 157 (59.7) | 52 (67.5) | 32 (58.2) | 27 (51.9) | 46 (58.2) | | |
| Age (years), M (SD) | 10.97 (3.6) | 11.40 (3.5) | 11.27 (4.3) | 10.96 (4.3) | 10.35 (2.4) | $F(3, 259)=1.29, p=.28,$ $\eta^2_p=.015$ | |
| 6-16 years old, n (%) | 215 (90.1) | | | | | | |
| Time since diagnosis (years), M (SD) | 4.55 (3.4) | 6.47 (3.54) | 4.18 (3.0) | 4.42 (3.7) | 3.03 (2.4) | $F(3,259)=16.97, p<.001,$ $\eta^2_p=.16$ | a*<d, e, o |
| Ethnicity, n (%) | | | | | | | |
| Caucasian | 262 (99.99) | 77 (100) | 54 (99.98) | 52 (100) | 79 (100) | | |
| Romani | 1(.004) | - | 1 (.02) | - | - | | |

**p<.01; *p<.05

Methods

Participants

The participants were 263 parents of children with asthma ($n=77$), obesity ($n=79$), epilepsy ($n=52$) and diabetes ($n=55$) who were recruited at the pediatric outpatient services of three Portuguese public hospitals (Centro Hospitalar Leiria-Pombal E.P.E, Hospital Distrital de Santarém E.P.E., Hospital Garcia da Orta E.P.E.). The great majority of the participants were mothers (85.3%), lived within intact family structures (80.2%), had 9 years or less of formal education (56.7%) and came from low socioeconomic backgrounds (71.9%), reflecting the users' profile in public pediatric healthcare services in Portugal. The majority of the children's age range was between 6 and 16 years old (90.1%). Table 1 shows detailed sociodemographic and clinical information for each condition group.

Procedures

Formal authorizations were obtained from the hospitals' boards of directors. Data collection was conducted between January 2012 and January 2013, through a convenience sampling method. The medical files of the children attending medical routine appointments in the period of data collection at the pediatric outpatient services of three hospitals were screened by their physicians. Parents were selected based on their child's medical files, according to the following inclusion criteria:(1) child under 19 years old at the time of recruitment; (2) child's diagnosis of a chronic condition (asthma, epilepsy, obesity, or diabetes) for at least nine months; (3) absence of major developmental delays (e.g. cognitive) or psychiatric disorder in the child. In addition, two inclusion criteria for parents were considered:(1) being a partnered parent (i.e., currently sharing parental responsibilities with a partner); (2) currently assuming the role of primary caregiver for the child's chronic condition management. When eligible families came for their child's scheduled medical appointment, they were approached by a researcher, who provided detailed information about the study's aims and procedures. Nearly all parents (95.2%) who were selected agreed to participate in the study and provided informed consent. Those who declined mentioned that time constraints were the reason for refusal. Next, parents filled out a set of self-report measures in a room designated for research purposes, in the health institution that their child attended. A researcher was always available to answer parents' questions. One parent per family completed the research protocols.

Measures

Family cohesion

Family cohesion was assessed with a subscale of the Portuguese version of the Family Relationship Index in the Family Environment Scale (Moos & Moos, 1986). Cohesion is a 9-item subscale that assesses family members' perceptions of the degree of commitment, help and support among family members (e.g., "Family members really help and support one another" and "There is a feeling of togetherness in our family"). The participants responded using a 6-point Likert scale ranging from 1 (completely disagree) to 6 (completely agree), with higher scores indicating better family relationships. In the current sample, the Cronbach's alpha of the cohesion subscale was .83.

Family life difficulty and Parental mutuality

Family condition management was assessed with the Portuguese version of the Family Management Measure (FaMM; Knafl et al., 2011). The FaMM is a self-report measure that addresses caregivers' perceptions regarding dimensions of family life in the context of a child's chronic condition management. It is a relatively new and promising measure, which has already been applied cross-culturally (Hutton, Munt, Aylmer, & Deatrck, 2012; Zhang, Wei, Han, & Shen, 2013) and shown adequate psychometric proprieties (Knafl et al., 2011). In the current study we used two subscales of the FaMM: Family Life Difficulties and Parental Mutuality. Each item of these subscales is answered on a 5-point Likert scale ranging from 1 (strongly disagree) to 5 (strongly agree). Family life difficulty is a 14-item scale that addresses parents' perceptions of the extent to which their child's chronic condition makes their life difficult (e.g., "A condition like the one our child has makes family life very difficult"). Higher scores indicate more difficulty in dealing with the condition. The Cronbach's alpha of the family life difficulty scale in the current sample was .83. Parental mutuality is an 8-item scale that addresses perceptions of support, shared views and satisfaction with how the partners work together to manage the child's condition (e.g., "I am pleased with how my partner and I work together to manage our child's condition"). This scale is exclusively addressed to partnered parents. Higher scores indicate a more shared response and greater satisfaction with how the couple works together to manage the condition. In the current sample, the Cronbach's alpha for this scale was .79.

Parents' anxious and depressive symptoms

Symptoms of anxiety and depression were evaluated using the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS; Zigmond & Snaith, 1983). The HADS consists of two subscales: anxiety (n=7 items; e.g., "I am restless and can't keep still") and depression (n=7 items; e.g., "I feel as though I am slowed down"). Each item is answered on a 4-point scale ranging from 0 (*not at all/only occasionally*) to 3 (*most of the time/a great deal of time*). Scores range from 0 to 21 for each scale. Higher scores indicate more symptoms of anxiety or depression. Cronbach's alpha values for anxiety and depression subscales in the current sample were .81 and .76, respectively.

Children's Health-Related Quality of Life (proxy report)

The children's HrQoL was assessed using the Portuguese version of the DISABKIDS chronic generic module, proxy report (Schmidt & Group, 2006). The parents answered an abbreviated version of the instrument, which consisted of 10 items (e.g., "Does your child's condition bother him/her while he/she plays or does other things?") with regards to the last 4 weeks using a 5-point Likert scale ranging from 1 (*never*) to 5 (*always*). Higher scores represent better children's HrQoL as perceived by the parents. The Cronbach's alpha for DISABKIDS-10 in the current sample was .87.

Sociodemographic and clinical information

The sociodemographic and clinical information included parents' and children's age and sex, parents' education and job, and household composition. The clinical information regarding the children's condition (e.g., length of time since diagnosis) was obtained from the parent and verified in the patients' medical files. Using a classification system specifically developed for the Portuguese context and based on the educational level and current job of the primary caregiver (Simões, 1994), the family SES was classified in three groups: low, medium or high.

Data analyses

The data analyses were performed using the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS, 21.0) and Analysis of Product Moments (AMOS, 21.0). Except for the sociodemographic and clinical data, the missing data that were random and less than 5% of the values were handled by replacement of the individual mean scores for each scale. Given the limited number of family households with high SES, this variable was dichotomized into low ($n=189$) and medium/high ($n=74$). Differences between the clinical groups in sociodemographic and clinical characteristics

were examined using χ^2 tests and univariate analyses of variance (ANOVAs). When significant effects were found, *post hoc* analyses were conducted using pairwise comparisons with a Bonferroni correction (Tabachnick & Fidell, 2007). No differences for the major sociodemographic characteristics of the parents (sex, SES, age) were found between participants recruited at the three hospital sites. Because clinical groups differed significantly in the length of time since diagnosis ($F(3,259)=16.97, p<.001, \eta^2p=.16$) and SES ($\chi^2(3)=16.36, p=.001$), these two variables were entered as covariates in subsequent analyses. Multivariate analyses of covariance (MANCOVA) were performed to evaluate differences across conditions regarding family functioning (family cohesion, family life difficulty, parental mutuality) and parents' adjustment (anxiety, depression). Univariate analysis of covariance (ANCOVA) was performed to examine children's HrQoL differences across clinical groups. A partial eta-squared (η^2p) provided the estimate of the effect size for the analysis of variance. Structural equation modeling was used to test a parallel multiple mediation model (Hayes, 2013) in which family cohesion was linked to the adaptation outcomes of children (HrQoL) and their parents (anxiety and depression symptoms) via two mediators: family life difficulty and parental mutuality. Maximum-likelihood estimation procedures were used. The goodness of fit of path models was assessed using the reference values for two indexes: the comparative fit index (CFI) $\geq .95$ and root mean square error of approximation (RMSEA) $\geq .06$ (Hu & Bentler, 1999). The statistical significance of the indirect effects was estimated using bootstrap resampling procedures with 1000 samples (95% bias-corrected bootstrap confidence interval [BC 95% CI]). To analyze the moderating role of the clinical group in the associations tested within the mediation model, a multi-group analysis was conducted. The unconstrained model was compared to the model in which structural weights were constrained to be equal using the χ^2 difference method (Byrne, 2010). A model was considered invariant across the four clinical groups if the χ^2 difference was non-significant.

Results

Descriptive statistics and correlations for the study variables are presented in Table 2. Regarding mean group differences for family variables, a significant multivariate group effect of the clinical condition was found (Pillai's trace = .135, $F(9, 756) = 4.26, p < .000, \eta^2p = .05$). Parents of children with asthma reported the lowest levels of family life difficulty in comparison with all other groups. Moreover, parents of children with obesity reported lower levels of family cohesion than parents of children with asthma. With regards to adjustment variables, differences between groups were only found for children's HrQoL (proxy report). More precisely, parents of children with diabetes reported lower levels of HrQoL for their children in comparison with

parents of children with asthma and epilepsy. Additionally, parents of children with obesity reported lower levels of HrQoL for their children in comparison with parents of children with asthma. Family cohesion was positively associated with parental mutuality and negatively associated with family life difficulty. Parental mutuality and family life difficulties were negatively associated. Both family cohesion and parental mutuality were positively associated with children's HrQoL and negatively associated with parents' symptoms of anxiety and depression. Conversely, family life difficulty correlated positively with parents' psychopathology symptoms and negatively with parents' perceptions of their children's HrQoL.

Regarding the hypothesized mediational model, at first, we tested a path model that assessed all paths between the independent variable, the two mediators, and children's and parents' outcome variables. The initial model showed inadequate fit indexes (CFI=.87, RMSEA=.53). We then trimmed the model by removing non-significant paths, an approach described by Kline (2011).

Figure 1 depicts the final mediation model. The results for CFI (1.00) and RMSEA (.00) indicated a good model fit. Family cohesion was indirectly associated with parents' perceptions of their children's HrQoL via family life difficulty ($\beta=.14$; BC 95% CI= .08/.22). Concerning parents' outcomes, only indirect effects of family cohesion on anxiety through family life difficulty were identified ($\beta= -.12$; BC 95%CI= -.19/-.07), whereas for depression, both direct and indirect effects of family cohesion through family life difficulty and parental mutuality simultaneously were identified ($\beta= -.14$; BC 95%CI= -.22/-.08). This last indirect effect estimate (see Table 3) was followed by focused estimand-based analyses to assess the strength and significance of each specific indirect path (for the macro, see Amos Development Team, 2010). These analyses showed that the family cohesion => family life difficulty => parents' depressive symptoms indirect path was significant (indirect effect= -.06, 95% CI -.11/ -.04, $p= .001$), as was the family cohesion => parental mutuality=> parents' depressive symptoms indirect path (indirect effect = -.04, 95% CI -.07/ -.01, $p= .007$). A comparison of the strength of these two parallel indirect paths yielded a non-significant result (difference=.03, BC 95%CI -.02/.08, $p=.21$), suggesting that the two indirect paths did not differ in strength. We then ran multi-group analyses for the four clinical groups with structural weights constrained to be equal (Byrne, 2010) and assessed the difference in model fit. The difference between the unconstrained and the constrained model was nonsignificant, $\Delta\chi^2 (9, N=263)=9.04, p=.434$, supporting the view that the model yielded an equally good fit for data from all four clinical groups.

Table 2 - Between-group comparisons and associations among study variables

| Variables | A (n=77) | D (n=55) | E (n=52) | O (n=79) | Group Effect F | Pairwise comparisons | η^2_p | α | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 |
|--|---------------|---------------|---------------|---------------|-----------------------------|----------------------|------------|----------|---------|---------|---------|---------|---------|---|
| | M (SD) | M (SD) | M (SD) | M (SD) | | | | | | | | | | |
| 1.Family cohesion | 4.90 (.73) | 4.84 (.73) | 4.82 (.76) | 4.73 (.70) | F(3, 257) =2.50, p=.043 | o<a* | .03 | .83 | | | | | | |
| 2.Parental mutuality | 3.87 (.51) | 3.80 (.72) | 3.96 (.61) | 3.71 (.62) | F(3, 257) =2.78, p=.062 | | .03 | .79 | .43*** | | | | | |
| 3.Family life difficulty | 2.07 (.65) | 2.56 (.68) | 2.34 (.82) | 2.42 (.63) | F(3, 257) =10.29, p<.001 | a<d***,o* *, e* | .10 | .89 | -.28*** | -.29*** | | | | |
| 4.Parents' anxious symptoms | 1.12 (.55) | 1.23 (.53) | 1.16 (.64) | 1.21 (.49) | F(3, 257) =.83, p=.48 | | .01 | .81 | -.22*** | -.19** | .44*** | | | |
| 5.Parents' depressive symptoms | .67 (.50) | .74 (.50) | .62 (.54) | .80 (.51) | F(3, 257) =1.35, p=.26 | | .02 | .78 | -.37*** | -.32*** | .41*** | .67*** | | |
| 6.Children's HrQoL (proxy-report) | 4.52 (.53) | 4.05 (.63) | 4.40 (.65) | 4.21 (.64) | F(3, 257)=8.65, p<.001 | d<a**, e*; o<a* | .09 | .87 | .16* | .17*** | -.52*** | -.32*** | -.29*** | |

Notes. a=asthma; d=diabetes; e=epilepsy; o=obesity
 ***p<.001; **p<.01; *p<.05

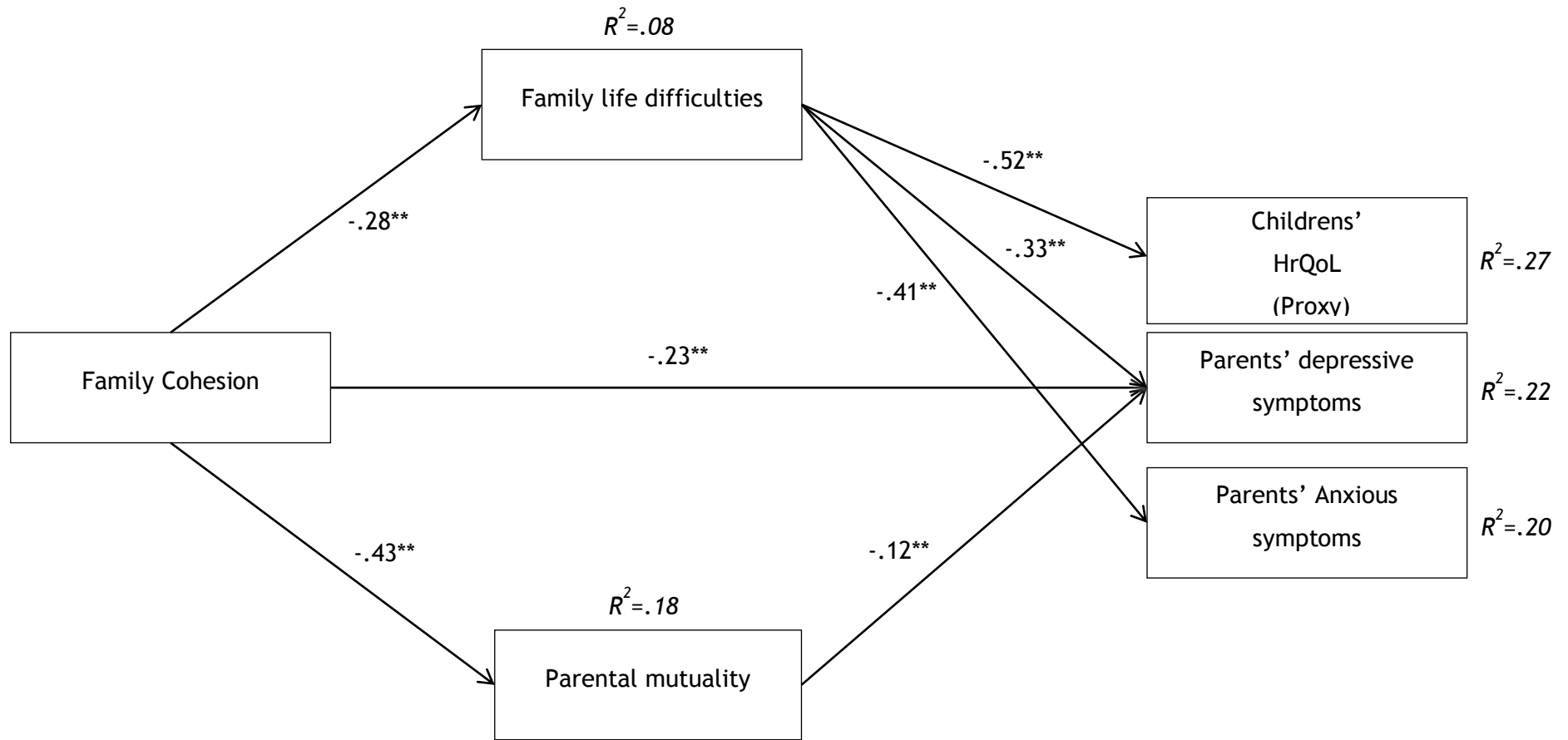


Figure 1 - Path analysis diagram testing the direct and indirect effects of family cohesion on children's and parents' adaptation.

Note: Non-significant paths are not represented (trimmed model). Figures inside arrows represent standardized coefficients; italic figures represent Pearson correlation coefficients. ** $p < .01$; * $p < .05$

Table 3. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediational model

| Parameters | Unstandardized coefficients (SE) | p value | BC bootstrap CI for indirect effects |
|-------------------------|----------------------------------|---------|--------------------------------------|
| Direct effects | | | |
| FC→FLD | -.27 (.06) | <.001 | |
| FC→PM | .36 (.05) | <.001 | |
| FLD→HrQoL(C) | -.47 (.05) | <.001 | |
| FLD→PAS | .34 (.04) | <.001 | |
| FLD→PDS | -.23 (.04) | <.001 | |
| FC→PDS | -.12 (.03) | <.001 | |
| PM→PDS | -.10 (.04) | .012 | |
| Indirect effects | | | |
| FC→AS(P) | -.09 (.03) | .002 | -.15/-.05 |
| FC→DS(P) | -.10 (.03) | .001 | -.16/-.05 |
| FC→HrQoL(C) | .13 (.04) | .002 | .07/ .22 |

Notes. FC: family cohesion; FLD: family life difficulty; PM: parental mutuality; HrQoL (C): health-related quality of life (child); AS (P): anxious symptoms (parent); DS (P): depressive symptoms (parent)

Discussion

This study investigated general and condition management-related family functioning and adaptation indicators in children with asthma, diabetes, epilepsy, and obesity and their parents. Mean group comparisons revealed differences in the study variables across clinical groups. Overall, according to the parents' perceptions, pediatric obesity, diabetes, and epilepsy were more challenging conditions for families than pediatric asthma. With regards to the pattern of associations between general and management-related family functioning and adaptation, there were no differences among the four conditions. We hypothesized and found evidence for a mediation model in which family cohesion was associated with both children's HrQoL and parents' anxious and depressive symptoms via parental mutuality and family life difficulty.

Parents of children with obesity reported lower levels of family cohesion in comparison with parents of children with asthma. Our results are in accordance with those of Herzer et al. (2010), which compared levels of family functioning across five pediatric chronic conditions and a control group. In that study, the authors used the Family Assessment Device (Epstein, Baldwin, & Bishop, 1983), a measure that provides clinical cut-off scores in different dimensions of family functioning. The results showed no significant differences across conditions, however, approximately one-quarter of families scored within the unhealthy range in specific dimensions of family functioning; the obesity group showed the lowest levels in the affective involvement and in the family communication dimensions (Herzer et al., 2010). The higher risk status of childhood obesity for poorer global family functioning also finds support in obesity research, with low scores in the dimensions of family communication, behavior control, cohesion, hierarchy and high scores in conflict being reported for parents in this group (e.g. Davis, LaShun, Davis, & Moll, 2011; Kitzmann & Beech, 2006). Furthermore, empirically validated family-based interventions in pediatric obesity have emphasized the importance of promoting a supportive family atmosphere to achieve better adjustment outcomes for family members and to prevent treatment drop-outs (Kitzmann & Beech, 2006).

When contrasting the four chronic condition groups on specific indicators of condition management-related family functioning, significant group differences were found for family life difficulty. More specifically, our results showed that parents of children with diabetes, obesity, and epilepsy reported higher levels of family difficulty in comparison with parents of children with asthma. These results are in line with previous research suggesting that parents with increased responsibility for the daily management of their child's condition experience higher levels of stress (e.g. Fiese et al., 2008). Diabetes is considered a chronic condition that demands

a high level of responsibility from patients and their families in terms of condition management (e.g. Solowiejczyk, 2004). The requirements of effective diabetes management are complex and based on spot decision-making, which can become burdensome and stressful for youth with T1D and their families (Anderson, 2004; Solowiejczyk, 2004). Such intensive treatment requires more disease-focused behavior by the child as well as by the parents, with few periods of relief for the family (Anderson, 2004). In the present study, obesity was also considered a high-risk condition for experiencing family difficulties. Recent advances in treatment approaches have emphasized the role of parents as active agents of change in the context of childhood obesity, particularly by shaping their child's healthy weight behaviors, such as physical activity involvement and dietary intake (Kitzmann & Beech, 2006). For parents, implementing these tasks can be burdensome, as shown by the high frequency of mealtime challenges, less positive mealtime family interactions (Zeller et al., 2007) and high rates of non-adherence to treatments (Bean et al., 2015). The fact that many parents of children with obesity are themselves facing the same obesity problems may amplify the difficulties of family management (Davis et al., 2011; Zeller et al., 2007). Regarding childhood epilepsy, our results find support in those of Austin (1988), which reported lower levels of children's self-esteem, family communication and extended family support among families of children with epilepsy compared to families of children with asthma. The social stigma attached to epilepsy shows strong associations with maladaptive parental attitudes and behaviors, particularly overprotective practices, which, in turn, may compromise the adjustment of family members and the entire family unit, even in less severe clinical cases (e.g. Carlton-Ford, Miller, Nealeigh, & Sanchez, 1997; Wu et al., 2014). Furthermore, the extent of family difficulty reported by parents in the epilepsy group may be related to the management of comorbidities that are common to epilepsy (e.g., learning difficulties, behavioral or emotional problems), which is aggravated by frequent problems obtaining support for the child's health and academic performance and unsatisfactory interactions with the child's healthcare providers and school personnel (Austin & Caplan, 2007).

Regarding adaptation outcomes, the groups did not differ concerning parents' anxiety and depression symptoms. Research comparing the parental psychological adjustment across pediatric chronic conditions is scarce. Most studies are condition-specific and involve comparisons with community samples; these studies usually attest that parents of children with chronic conditions have an increased risk of developing psychopathology symptoms (e.g., Ferro et al., 2011). One of the few exceptions is the comparative study conducted by Chiou and Hsieh (2008), which reported higher levels of depression among mothers of children with epilepsy compared to mothers of children with asthma. Moreira et al. (2013) used a different indicator of adaptation (i.e., parental QoL) and found that caregivers of youth with obesity showed worse QoL levels compared to caregivers of youth with diabetes, epilepsy, asthma and cerebral palsy.

Our results also showed that children with diabetes and obesity were at higher risk for lower HrQoL compared to children with asthma and epilepsy. Ingerski et al. (2010) showed that caregivers of youth with obesity reported the lowest levels of their children's HrQoL in both the physical and social domains compared to youth with diabetes and epilepsy. The higher risk of children with obesity is supported by studies that warn about increased rates of peer victimization among this population, namely, weight-related teasing and social marginalization (Jelalian & Hart, 2009). Our results differ somewhat from those of Moreira et al. (2013), which assessed the general QoL of children (8-18) across pediatric chronic conditions using self-report measures. In their study, the children who were particularly at risk for impaired QoL were those with obesity and epilepsy but not those with diabetes. The use of different measures and informants may explain these discrepancies. Past research shows that pediatric conditions may be experienced and perceived in distinct ways by family members (Alderfer et al., 2008; Carlton-Ford et al., 1997). Our results contrast with those of Varni et al. (2007), according to which parents of children with asthma perceived their children's HrQoL as more impaired than did parents of children with diabetes or obesity. Furthermore, Hoare et al. (2000) compared parents' perceptions of their children's HrQoL and found that parents of children with epilepsy had consistently more concerns and perceived epilepsy as having a stronger impact on the family and on their child's well-being compared to parents of children with diabetes. In contrast to our study, Hoare's sample comprised a substantial percentage of children with epilepsy who also had an additional disability.

We found evidence for a specific mediation model through which family cohesion was associated with the adaptation outcomes of both children and their parents via parental mutuality and family life difficulty. Although family cohesion showed a direct and an indirect relationship with parental depressive symptoms, its links with both parental anxious symptoms and children's HrQoL were only indirect. More precisely, when parents reported higher levels of family cohesion, they also reported lower levels of family life difficulty and higher levels of parental mutuality, which, in turn, were linked to lower levels of parents' depressive and anxious symptoms and better children's HrQoL. The present findings attest to the importance of whole family functioning in conditions of health adversity. According to systems theory, the extent to which the family is able to attend to the family system's needs and keep the illness "in its place" can be regarded as an important determinant of the quality of the adaptation of the individual family members (Cohen, 1999; Knafel et al., 2013). Additionally, our results underscore the added value of combining general and condition management-related family measures in explaining the variability of family members' adaptation. The way family members support, spend time and rely on each other (i.e., family cohesion) can promote optimal conditions for parents to address the specific demands of the clinical condition on family life and to work together as a team. Despite

scarce, past studies in pediatric diabetes have already suggested the unique contribution of condition management-related vs. general parent-child behaviors in understanding children's HrQoL (Weissberg-Benchell et al., 2009). Family life difficulty can be regarded as a good indicator of how the family is coping together with the challenges associated with a chronic condition. Our results are in line with previous research that linked compromised family-based asthma management skills to poorer asthma outcomes among children (McQuaid et al., 2005). Additionally, parents' perceptions of caregiving tasks and asthma management routines as overly demanding and burdensome have been associated with negative mother-child interactions, which may influence the way parents respond to children's healthcare and emotional needs and their adaptation over time (Fiese et al., 2008). Regarding the other mediator, parental mutuality, Wysocki and Gavin (2006) reported that paternal involvement was associated with more favorable status on multiple dimensions of maternal psychological functioning, marital satisfaction, and family coping with the pediatric chronic condition. Furthermore, past research shows that one of the most consistent predictors of parenting quality is marital satisfaction (Belsky, 1984).

The present study presents some limitations, as discussed next. First, given our aim to address families with children in pediatric settings, we did not set a minimum age for children and we thus relied on parents' reports of children's HrQoL and family functioning. Given that families with children under the age of eight years-old – considered the benchmark age for reliably self-report – were eligible, this decision prevented the consideration of the children's perspective (Schmidt & Group, 2006); due to the fact that one parent was the sole informant, some of the results may be due to shared method variance. Past research shows that while a fundamental role remains for parent-proxy reports in pediatric clinical trials and health services research because parents' perceptions of their children's HrQoL typically influence health care utilization, clinical decision-making and home treatment regimens (Varni et al., 2007), recent studies examining (dis)agreement between parent-proxy reports and youth self-reports of HrQoL suggest that, regardless of the condition, caregivers tend to report lower HrQoL in comparison to youth self-reports (Silva, Crespo, Carona, Bullinger, & Canavarro, 2015). Future studies integrating both children's and parents' perspectives when examining family functioning and adaptation outcomes will be important in order to examine the consistency of our findings. A second limitation of the study is related to the convenience sampling method adopted. Specifically, the majority of the participants recruited for this study were mothers from low SES. Despite consistent with past research in pediatric settings with family caregivers (e.g. Ingersky et al., 2010; Crespo et al., 2011) and in line with the users' profile in Portuguese outpatient public health care services, the sample characteristics precluded the examination of sex differences and required the dichotomization of the SES variable. Future studies should obtain

more diversity in families' socioeconomic status and additional efforts should be made in order to increase the inclusion of fathers' perspectives. Moreover, although the directional paths tested in the mediation model have been hypothesized according to the theoretical and empirical literature, the study's cross-sectional design excludes inferring causality among the variables. In addition, relationships among family levels of variables (global, condition management-related) and individual outcomes are likely to be bidirectional. Further longitudinal research should be undertaken to clarify the direction of these associations. Another limitation of this study is the absence of disease-specific markers, such as the percentage of youth with poorly controlled seizures, unsatisfactory glycosylated hemoglobin, persistent asthma episodes or non-weight loss, which were not assessed in the present study. Given the important role played by symptom control in perceptions of burden (e.g. Carlton-Ford et al., 1997), this may be an important point to consider in future research. Furthermore, our study only comprised coupled parents, given the focus placed on a specific mediator - parental mutuality. Past research has shown that family management of the condition may be particularly challenging for single-parent households given the lower levels of support or resources to effectively execute the multiple components of chronic condition care in these families (Herzer et al., 2010). Finally, the sample sizes for pediatric chronic conditions were small; thus, the invariance found for the mediation model across conditions must be interpreted with caution. In future studies, the mediation model should be tested in samples of parents of children with chronic conditions with a more balanced distribution according to sex, age, socioeconomic background and family structure.

Despite the aforementioned limitations, the current study builds upon and extends the current literature in several ways. To the best of our knowledge, the present study is the first to combine general and specific (i.e., condition management-related) family functioning measures, to compare them across four groups of parents of children with highly prevalent chronic conditions and to examine their associations with key adaptation outcomes. The results specify dimensions of family functioning that either support or hinder the positive adaptation of both children and their parents, providing evidence for possible avenues of future intervention. More precisely, our results stress the need for family-centered interventions aimed at promoting parents' mutuality and effective coping with the demands imposed by the pediatric chronic condition as well as the sense of belongingness and togetherness among family members. According to our results, pediatric populations with diabetes, obesity, and epilepsy present a higher risk for family difficulties and children's deteriorated HrQoL compared with the population with asthma and may require more careful consideration at the assessment and intervention levels. Finally, the examination of additional dimensions of family functioning is paramount for mapping how general and condition management-related family functioning are linked to parents' and children's adaptation in pediatric chronic conditions.

References

- Alderfer, M., Fiese, B., Gold, J. I., Cutuli, J. J., Holmbeck, G. N., Goldbeck, L., . . . Patterson, J. (2008). Evidence-based assessment in pediatric psychology: family measures. *Journal of pediatric psychology, 33*(9), 1046-1061. doi:10.1093/jpepsy/jsm083
- Amos Development Team. (2010). Videos <http://amosdevelopment.com/video/> Retrieved 15/01/2015
- Anderson, B. J. (2004). Family Conflict and Diabetes Management in Youth: Clinical Lessons From Child Development and Diabetes Research. *Diabetes Spectrum, 17*(1), 22-26.
- Austin, J. K. (1988). Childhood epilepsy: child adaptation and family resources. *Journal of Child and Adolescent Psychiatric Nursing, 1*(1), 18-24.
- Austin, J. K., & Caplan, R. (2007). Behavioral and psychiatric comorbidities in pediatric epilepsy: toward an integrative model. *Epilepsia, 48*(9), 1639-1651. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01154.x
- Bean, M. K., Powell, P., Quinoy, A., Ingersoll, K., Wickham, E. P., & Mazzeo, S. E. (2015). Motivational interviewing targeting diet and physical activity improves adherence to paediatric obesity treatment: results from the MI Values randomized controlled trial. *Pediatric Obesity, 10*(2), 118-125. doi:10.1111/j.2047-6310.2014.226.x
- Belsky, J. (1984). The determinants of parenting: a process model. *Child Development, 55*(1), 83-96.
- Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts, applications, and programming* (2nd ed.). New York, NY US: Routledge/Taylor & Francis Group.
- Carlton-Ford, S., Miller, R., Nealeigh, N., & Sanchez, N. (1997). The effects of perceived stigma and psychological over-control on the behavioural problems of children with epilepsy. *Seizure, 6*(5), 383-391.
- Chiou, H. H., & Hsieh, L. P. (2008). Comparative Study of Children's Self-Concepts and Parenting Stress Between Families of Children With Epilepsy and Asthma. *Journal of Nursing Research, 16*(1), 65-74.
- Cohen, M. S. (1999). Families coping with childhood chronic illness: A research review. *Families, Systems & Health, 17*(2), 149-164. doi:10.1037/h0089879
- Crespo, C., Carona, C., Silva, N., Canavarro, M., & Dattilio, F. (2011). Understanding the Quality of Life for Parents and Their Children Who have Asthma: Family Resources and Challenges. *Contemporary Family Therapy, 33*(2), 179-196. doi:10.1007/s10591-011-9155-5
- Davis, M., LaShun, Y., Davis, S. P., & Moll, G. (2011). Parental Depression, Family Functioning, and Obesity Among African American Children. *ABNF Journal, 22*(3), 53-57.

Drotar, D. (1997). Relating parent and family functioning to the psychological adjustment of children with chronic health conditions: What have we learned? What do we need to know? *Journal of pediatric psychology*, 22(2), 149-165. doi:10.1093/jpepsy/22.2.149.

Epstein, N. B., Baldwin, L. M., & Bishop, D. S. . (1983). The McMaster family assessment device. *Journal of Marital and Family Therapy*, 9(2), 171-180.

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011). The impact of maternal depressive symptoms on health-related quality of life in children with epilepsy: a prospective study of family environment as mediators and moderators. *Epilepsia*, 52(2), 316-325. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02769.x

Fiese, B., Winter, M., Anbar, R., Howell, K., & Poltrock, S. (2008). Family climate of routine asthma care: associating perceived burden and mother-child interaction patterns to child well-being. *Family process*, 47(1), 63-79.

Hayes, A. (2013). *Introduction to Mediation, Moderation, and Conditional Process Analysis: A Regression-Based Approach*. NY: NY: Guilford Press.

Herzer, M., Godiwala, N., Hommel, K. A., Driscoll, K., Mitchell, M., Crosby, L. E., . . . Modi, A. C. (2010). Family functioning in the context of pediatric chronic conditions. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 31(1), 26-34. doi:10.1097/DBP.0b013e3181c7226b

Hoare, P., Mann, H. , & Dunn, S. . (2000). Parental perception of the quality of life among children with epilepsy or diabetes with a new assessment questionnaire. *Quality Of Life Research*, 9(6), 637-644.

Hu, L., & Bentler, P. (1999). Cutoff Criteria for Fit Indexes in Covariance Structure Analysis: Conventional Criteria versus New Alternatives. *Structural Equation Modeling*, 6(1), 1-55.

Hutton, A. , Munt, R., Aylmer, C., & Deatrick, J. (2012). Using the family management measure in Australia. *Neonatal, pediatric and child health nursing* 15(2), 17-25. doi:10.13140/2.1.4492.3843

Ingerski, L. M., Modi, A. C., Hood, K. K., Pai, A. L., Zeller, M., Piazza-Waggoner, C., . . . Hommel, K. A. (2010). Health-related quality of life across pediatric chronic conditions. *Journal of pediatrics*, 156(4), 639-644. doi:10.1016/j.jpeds.2009.11.008

Jelalian, E., & Hart, C. . (2009). Pediatric Obesity In M. C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (fourth edition ed.). New York: Guildford.

Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Navsaria, N. (Eds.). (2009). *Families and other systems in pediatric psychology* (4th ed.). New York: Guilford Press.

Kitzmann, K. M., & Beech, B. M. (2006). Family-based interventions for pediatric obesity: methodological and conceptual challenges from family psychology. *Journal of Family Psychology*, 20(2), 175-189. doi:10.1037/0893-3200.20.2.175

Kline, R. (2011). *Principles and practice of structural equation modeling* (3rd ed.). New York, NY US: Guilford Press.

Knafl, K. A., Deatrick, J. A., Gallo, A., Dixon, J., Grey, M., Knafl, G., & O'Malley, J. (2011). Assessment of the psychometric properties of the Family Management Measure. *Journal of pediatric psychology*, 36(5), 494-505. doi:10.1093/jpepsy/jsp034

Knafl, K. A., Deatrick, J. A., Knafl, G. J., Gallo, A. M., Grey, M., & Dixon, J. K. (2013). Patterns of family management of childhood chronic conditions and their relationship to child and family functioning. *Journal of Pediatric Nursing*, 523-535. doi:10.1016/j.pedn.2013.03.006

McQuaid, E. L., Walders, N., Kopel, S. J., Fritz, G. K., & Klinnert, M. D. (2005). Pediatric asthma management in the family context: the family asthma management system scale. *Journal of pediatric psychology*, 30(6), 492-502. doi:10.1093/jpepsy/jsi074

Modi, A. C., Pai, A. L., Hommel, K. A., Hood, K. K., Cortina, S., Hilliard, M. E., . . . Drotar, D. (2012). Pediatric self-management: a framework for research, practice, and policy. *Pediatrics*, 129(2), e473-485. doi:10.1542/peds.2011-1635

Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family Environment Scale Manual* (2nd ed. ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.

Moreira, H., Carona, C., Silva, N., Frontini, R., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2013). Psychological and quality of life outcomes in pediatric populations: a parent-child perspective. *Journal of pediatrics*, 163(5), 1471-1478. doi:10.1016/j.jpeds.2013.06.028

Oka, E., Ohtsuka, Y., Yoshinaga, H., Murakami, N., Kobayashi, K., & Ogino, T. (2006). Prevalence of childhood epilepsy and distribution of epileptic syndromes: a population-based survey in Okayama, Japan. *Epilepsia*, 47(3), 626-630. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00477.x

Passa, P. (2002). Diabetes trends in Europe. *Diabetes/ Metabolism research and reviews*, 18(3)(1520-7552 (Print)), S3-S8.

Pearce, N., Ait-Khaled, N., Beasley, R., Mallol, J., Keil, U., Mitchell, E., & Robertson, C. (2007). Worldwide trends in the prevalence of asthma symptoms: phase III of the International Study of Asthma and Allergies in Childhood (ISAAC). *Thorax*, 62(9)(0040-6376 (Print)), 758-766.

Rodenburg, R., Stams, G. J., Meijer, A. M., Aldenkamp, A. P., & Dekovic, M. (2005). Psychopathology in children with epilepsy: a meta-analysis. *Journal of pediatric psychology*, 30(6), 453-468. doi:10.1093/jpepsy/jsi071

Rolland, J. S. (1994). *Families, illness, and disability: an integrative treatment model*. New York: BasicBooks.

Schmidt, S., & Group, European Disabkids. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich, Germany: Pabst Science Publishers.

Silva, N., Crespo, C., Carona, C., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2015). Why the (dis)agreement? Family context and child-parent perspectives on health-related quality of life and psychological problems in paediatric asthma. *Child: care, health and development*, 41(1), 112-121. doi:10.1111/cch.12147

Simões, M. (1994). *Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population*. (Unpublished doctoral dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Solowiejczyk, J. (2004). The Family Approach to Diabetes Management: Theory Into Practice Toward the Development of a New Paradigm. *Diabetes Spectrum*, 17(1), 31-36.

Steele, R. G., & Janicke, D. M. (2013). Changing times call for changing methods: introduction to the special issue on innovative treatments and prevention programs for pediatric obesity. *Journal of pediatric psychology*, 38 (9)(1465-735X (Electronic)), 927-931. doi:10.1093/jpepsy/jst066

Stein, R. E., & Jessop, D. J. (1982). A noncategorical approach to chronic childhood illness. *Public Health Reports*, 97(0033-3549 (Print)), 354-362.

Tabachnick, B. G., & Fidell, L. S. (2007). *Using multivariate statistics* (5th ed.). Boston, MA: Allyn & Bacon/Pearson Education.

Varni, J.W., Limbers, C.A., & Burwinkle, T.M. (2007). Parent proxy-report of their children's health-related quality of life. *Health Quality of Life Outcomes*, 5(2), 1-10. doi:10.1186/1477-7525-5-2

Weissberg-Benchell, J., Nansel, T., Holmbeck, G., Chen, R., Anderson, B., Wysocki, T., & Laffel, L. . (2009). Generic and Diabetes-specific Parent-Child Behaviors and Quality of Life Among Youth with Type 1 Diabetes. *Journal of pediatric psychology*, 34(9), 977-988. doi:10.1093/jpepsy/jsp003

Wu, Y. , Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, 55(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586

Wysocki, T., & Gavin, L. (2006). Paternal involvement in the management of pediatric chronic diseases: associations with adherence, quality of life, and health status. *Journal of pediatric psychology*, 31(5), 501-511. doi:10.1093/jpepsy/jsj042

Zeller, M. H., Reiter-Purtill, J., Modi, A. C., Gutzwiller, J., Vannatta, K., & Davies, W. H. (2007). Controlled study of critical parent and family factors in the obesigenic environment. *Obesity*, 15(1), 126-136. doi:10.1038/oby.2007.517

Zhang, Y., Wei, M., Han, H. R., & Shen, N. (2013). Testing the Applicability of the Family Management Style Framework to Chinese Families. *Western Journal of Nursing Research*, 35(7), 920-942. doi:10.1177/0193945913482051

Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, 67(6), 361-370. doi:10.1037/t03589-000

Estudo IV

Family cohesion, stigma and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents

Teresa Mendes • Carla Crespo • Joan Austin

2017, *Journal of Pediatric Psychology*, 42(6), 689-699

doi:10.1093/jpepsy/jsw105

Family cohesion, stigma and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo² • Joan Austin³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

³Indiana University School of Nursing, University of Indiana, Indianapolis, USA

Abstract

Objective: To examine the mediating role of stigma on the links between family cohesion and quality of life (QoL) in children with epilepsy and their parents. **Methods:** Participants were 192 families attending three Portuguese public hospitals. Children and parents completed self-report measures of family cohesion, stigma, QoL and health-related QoL(HRQoL). Neurologists assessed clinical variables. Structural equation modeling within the framework of the actor–partner interdependence model was used. **Results:** The final model showed a good fit to the data, explaining 43% and 35% of the QoL outcomes of children and parents, respectively. Family cohesion was positively linked to QoL outcomes, directly for children and parents, and indirectly for children only, by way of negative links with perceived stigma. At the dyadic level, parents' perceptions of family cohesion were positively associated with children's HRQoL. **Conclusions:** A routine screening of those patients experiencing poorer HRQoL should include the assessment of family relationships and stigma.

Keywords: epilepsy; stigma; family cohesion; children and adolescents; quality of life; parents

Introduction

Over recent decades, health-related quality of life (HRQoL) - a subdomain of the more global construct quality of life (QoL) - has become a widely studied issue in investigations of clinical decision-making in pediatric epilepsy and has been proven helpful for understanding the impact of the condition and its treatments on children and their families (e.g., Ferro, 2014; Ronen, Streiner, & Rosenbaum, 2003). Recent longitudinal studies examining children's HRQoL trajectories have brought new understanding of why epilepsy is much more than seizures (Ferro et al., 2013; Ramsey, Loiselle, Rausch, Harrison, & Modi, 2016). While a high percentage of children in the two years following diagnosis seem to be functioning well, there is still a significant percentage who struggles with multiple aspects of daily life, despite improved seizure control and decreased side-effects (Ferro et al., 2013; Ramsey et al., 2016).

A growing body of research within pediatric epilepsy shows that family factors, namely those related to family environment and functioning, are among a robust set of factors predicting children's HRQoL, and that they exert their influence independently of disease factors (Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2005; Y. Wu, Follansbee-Junger, Rausch, & Modi, 2014). The relevance of family functioning appears particularly important to the social and emotional components of children's HRQoL (Ramsey et al., 2016). With regard to parents, more supportive family environments have been associated with better QoL (Shore, Austin, Huster, & Dunn, 2002).

A central dimension of the family environment is family cohesion. This term refers to the extent to which family members are supportive of and committed to the family (Moos & Moos, 1986). Cohesive families are generally described as exhibiting warm and positive emotional relationships within and across family subsystems (Barber & Buehler, 1996). Little is known about the specific role of family cohesion in the HRQoL of children with epilepsy and in the QoL of their parents. Additionally, there is a scarcity of studies examining the specific mechanisms through which family factors, such as family cohesion, may be associated with QoL outcomes in these families. One possible pathway is through perceptions of stigma.

The World Health Organization/ International League Against Epilepsy/ International Bureau of Epilepsy have carried out a global campaign to bring epilepsy out of the shadows and change public attitudes (Baulac et al., 2015). Nevertheless, stigma is still a major piece in the hidden burden of epilepsy for patients and families, even in countries known for their higher standards of epilepsy medical care – like southern European countries (Baker, Brooks, Buck, & Jacoby, 2000; Baulac et al., 2015; Malmgren et al., 2003). Stigma can result either from facing real episodes of discrimination on the grounds of holding an undesired attribute, i.e., seizure condition (enacted stigma), or from the fear of encountering discrimination at any time (felt

stigma) (Austin, MacLeod, Dunn, Shen, & Perkins, 2004). In Western societies, felt stigma is a more pervasive problem than enacted stigma (Baulac et al., 2015).

For families with a child with epilepsy, dealing with the stigmatizing nature of epilepsy becomes a family matter (McNelis, Buelow, Myers, & Johnson, 2007). Parents play a key role in the process by which children with epilepsy come to understand and cope with their undesired difference (Lambert, Gallagher, O'Toole, & Benson, 2014). Of particular relevance seems to be the way parents interact and communicate about epilepsy, either verbally or non-verbally, both within and outside the family (O'Toole et al., 2015). The fact that epilepsy becomes overtly visible only during times of a seizure leads some parents to limit disclosure or even to keep their child's diagnosis a secret, while restraining their participation in social events and relocating their family time from recreation outside to inside the house (Austin et al., 2004; Lambert et al., 2014; Painter, Rausch, & Modi, 2014). Children perceiving higher levels of stigma feel embarrassed about having epilepsy. They are afraid of being regarded as different from their peers and of being teased and bullied if a seizure occurs in front of others (Austin, Perkins, & Dunn, 2014). These emotions negatively impact their HRQoL. With regard to parents' QoL, the impact of perceived stigma remains to be examined in further detail.

The ways in which the family, as a system, address epilepsy-related stigma needs further clarification. Children with epilepsy and their parents share the same family environment and experience together the process of living with epilepsy with all its associated challenges and concerns. This joint context of development sets the stage for dynamic mutual influences between children and parents, at the level of behavior, feelings and thoughts, that take place over time, as emphasized by the transactional model of development applied to family functioning (Fiese & Sameroff, 1989). However, while the interdependence of the members of family dyads has increasingly been acknowledged in literature (e.g. Driscoll, Schatschneider, McGinnity, & Modi, 2012; Kenny, Kashy, & Cook, 2006), research questions and data analytic strategies usually focus separately on either parents or children. This happens even when information from both the child and the parent are available, a fact which represents a failure to consider how this shared relational experience may influence outcomes.

The present study aimed at examining the dyadic associations between family cohesion, perceived stigma, and QoL outcomes in dyads of children with epilepsy and their parents. Specifically, we tested the role of stigma as a pathway through which family cohesion is associated with the QoL of both children and parents. We used the actor-partner interdependence model (APIM) (Kenny et al., 2006), a data analytic approach that takes into account the interdependence of children's and parents' appraisals and enables the simultaneous examination of the impact of a person's score on a predictor variable on both their outcome variables (actor effect) and on the outcome variable of the other element of the dyad (partner effect). In order to examine

these relationships following the initial crisis of diagnosis (Ramsey et al., 2016; Rood, Schultz, Rausch, & Modi, 2014), only families 9 months past initial diagnosis were included.

Our main hypotheses were: (1) children's and parents' perceptions of family cohesion would be positively related to their own (actor effects) and the others' (partner effects) QoL outcomes; (2) children's and parents' perceptions of stigma would be negatively related to their own and others' QoL outcomes; (3) children's and parents' perceptions of family cohesion would be negatively related to their own and others' perceptions of stigma; and (4) perceptions of family cohesion would be related to QoL outcomes of children and their parents, both directly and indirectly, via perceptions of stigma. The rationale behind these hypotheses is the idea that family cohesion may possibly function as a resource for dealing positively with the diagnosis of epilepsy, namely with the threat of stigma that epilepsy may bring and that it may lead to better QoL outcomes for both children and parents. Finally, acknowledging previous evidence of the influence of children's age, epilepsy severity and family socioeconomic status (SES) on children's QoL (Austin et al., 2014; Ferro, 2014) a further exploratory aim was to investigate if results were valid across children's age groups (children vs. adolescents), epilepsy severity groups (low vs. moderate/high), and family socioeconomic status (low vs. medium/high).

Method

Procedure and Participants

The Boards of Directors of three Portuguese public hospitals from the central and southern regions of the country approved the study. The participants were children with epilepsy and one of their parents who were recruited at the pediatric outpatient services. The eligibility criteria for study participation included (1) clinical diagnosis of epilepsy made by a pediatric neurologist at least 9 months previously; (2) child age between 8-18 years; (3) absence of developmental delay or other nonneurologic conditions (e.g., asthma requiring daily medication); and (4) parent referred to as the primary care provider for health-related issues. Children with comorbid ADHD, specific learning difficulties (dyslexia, dysortographia, dyscalculia) or behavioral or emotional problems were included because of the high rates of prevalence of these disorders in childhood epilepsy. Excluded from the study were children with an IQ lower than 70, as shown in medical records, and those not attending mainstream schools. Potential participants were invited to take part during the children's routinely scheduled neurology appointments. Medical staff checked the daily scheduled appointments in advance and determined the children's eligibility according to the study's inclusion/exclusion criteria. Data collection with a convenience sampling method was conducted between July 2012 and

September 2014. Families were only invited to participate if they met inclusion criteria. Informed consent and assent were obtained from each participating parent and child, respectively. A 94% recruitment rate was achieved; time constraints were the main reason for non-participation. No compensation was given to participants. Parents and children completed the questionnaires independently in a room designated for the research purposes on the day of their appointment. Children with reading difficulties received researcher assistance to complete the questionnaires. Neurologists assessed clinical variables at the end of the clinical visit.

Measures

Family cohesion

Children's and parents' perceptions of family cohesion were assessed with the 9-item subscale from the Portuguese version of the Family Environmental Scale [FES] (Moos & Moos, 1986). The cohesion subscale assesses family members' perceptions of the degree of commitment, help and support within the family (Moos & Moos, 1986). Examples of cohesion items are "Family members really help and support one another" and "There is a feeling of togetherness in our family." The participants responded using a 6-point Likert scale ranging from 1 (completely disagree) to 6 (completely agree). Mean ratings were calculated, with higher scores indicating higher levels of family cohesion. This subscale has demonstrated adequate internal consistency and construct validity (Sanford, Bingham, & Zucker, 1999). In the current study, the Cronbach's alphas for parents and children were .84 and .82, respectively.

Perceived stigma

Parental perceived stigma was assessed using the Portuguese version of the Parent Stigma Scale (Austin et al., 2004), which is a five-item instrument developed to assess caregivers' belief that their child is experiencing stigma or might experience stigma because of having epilepsy. An example item is "People who know that my child has a seizure condition treat him/her differently." Parents responded using a 5-point Likert scale ranging from 1 (strongly disagree) to 5 (strongly agree). Mean ratings were calculated, with higher scores indicating higher levels of perceived stigma. Children's perceived stigma was assessed using the Portuguese version of the Child Stigma Scale (Austin et al., 2004), an eight-item instrument on which children are asked to indicate how often they have had feelings related to internalized stigma (e.g., feeling different; being embarrassed about having seizures, avoiding disclosure) using a 5-point scale ranging from 1 (strongly disagree) to 5 (strongly agree). Item scores are summed and then averaged for a total stigma score, with higher scores representing greater perceived stigma. Both the parents' and the children's scales demonstrated adequate internal consistency, reliability and

construct validity in past research (Austin et al., 2004). In the current sample, the parents' and children's coefficient alphas were .69 and .77, respectively.

Parents' QoL

Parents' QoL was assessed with the Portuguese version of the Eurohis-QoL (Schmidt, Muhlan, & Power, 2006). This 8-item measure (e.g., "How satisfied are you with your health?") is a brief indicator of overall QoL and includes four domains (social, physical, psychological, and environmental) represented by 2 items each. It is answered on a 5-point Likert scale ranging from 1 (not at all/very dissatisfied) to 5 (completely/very satisfied). Higher scores indicate better QoL. In the current sample, the Cronbach's alpha for this scale was .83.

Childrens' HRQoL

For children, the Portuguese patient version of the Disabkids Chronic Generic Measure (DCGM) was used (Schmidt & European Disabkids Group, 2006). The children answered an abbreviated version of the instrument (12 items). The DCGM focuses specifically on the concept of HRQoL and measures the perceived impact of the chronic health condition and treatments on patients' lives (e.g., "Does your condition bother you while you play or do other things?"). The questionnaire was answered using a 5-point Likert scale ranging from 1 (never/not at all) to 5 (always/extremely). Higher scores indicated better children's HRQoL. The Cronbach's alpha for DCGM in the current sample was .87.

Sociodemographic information

The sociodemographic information was reported by the parent and included parents' and children's age and sex, parents' marital status, employment status and education level. The SES of each family was classified into three levels (low, medium, high) according to an accepted classification system for Portugal based on the parents' jobs and educational level (Simões, 1994). Most of our sample is comprised of families' belonging to the low SES, which is associated with lesser-qualified employees in construction or manufacturing, with less than a 9th grade education.

Clinical variables

Neurologists reported on epilepsy variables (e.g., age of onset, time since diagnosis, seizure type, seizure frequency, medication, and time since last seizure) and rated its overall severity, by filling out a medical chart specifically designated for the study at the end of the clinical visit. The severity of epilepsy was assessed with the neurologist-reported Global Assessment of

Severity of Epilepsy (GASE, Speechley et al., 2008), which asks clinicians to rate their patients' overall epilepsy severity since their last visit using a 7-point scale in light of their patients' current clinical situation (seizure frequency, medication requirements and side effects) and impact on daily life activities. Higher scores indicate more severe epilepsy. The GASE demonstrated adequate validity and reliability (Chan, Zou, Wiebe, & Speechley, 2015; Speechley et al., 2008).

Data analyses

Preliminary descriptive statistics and correlations were computed for all study variables using the Statistical Package for the Social Sciences v.21.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA). For analysis purposes, SES was dichotomized into two levels: low ($n=110$, 57.3%) and medium/high ($n=82$, 42.7%), given the limited number of family households belonging to the highest SES. The lack of homogenous distribution of the sample across the seven levels of epilepsy severity led to this variable being dichotomized into two levels: low (1-2) ($n=101$, 52.9%) and moderate/severe (3-7) ($n=90$, 46.8%).

We applied the actor-partner interdependence model (APIM) as proposed by Kenny (2006) to analyze the data. Because we hypothesized that the relationships between family cohesion as the predictor and QoL as the outcome would be mediated by perceived stigma, we built an actor partner interdependence mediation model (APIMeM, Ledermann, Macho, & Kenny, 2011). This option took into account the interdependency of children's and parents' scores and enabled us to estimate the impact of actor effects within a group, partner effects from one group on another (partner effects), as well as the indirect effects between the predictor and the outcome variables of both family members. APIMeM was tested within a Structural Equation Modeling (SEM) framework, using the Analysis of Product Moments software (AMOS, v.21.0). Using the dyad as a unit, all exogenous variables (cohesion of parents and of children) and the endogenous variables' error terms were correlated across the dyad members to account for the non-independence of children and their parent's scores (Kenny et al., 2006). Maximum-likelihood estimation procedures were used. The model's goodness of fit was assessed using the reference values for the main fit indices: χ^2 statistic non-significant, Comparative Fit Index (CFI) $\geq .95$, Root Mean Square Error of Approximation (RMSEA) and Standardized Root Mean Square Residuals (SRMR) $\leq .06$ (Hu & Bentler, 1999). The statistical significance of the indirect effects was tested via bias-corrected bootstrap analysis. As recommended by Williams and Mackinnon (2008), parameter estimates and confidence intervals of the total and specific indirect effects were generated based on 1,000 random samples. Mediation was demonstrated if the 95% bias-corrected (BC) confidence interval for the parameter estimate did not contain zero. Multigroup analyses were conducted to determine the degree to which the model was comparable between

the children's epilepsy severity groups (low/mild vs. moderate/high), age groups (children vs. adolescents), and SES (low vs. medium/high). The χ^2 difference method was used to compare the structural weights model with the model in which no cross-group constraints were imposed. Following Byrne (2010), a model was considered invariant if the $\Delta\chi^2$ difference was non-significant.

Results

Sample characteristics

The study comprised 192 dyads of children with epilepsy and one of their parents (mainly mothers, 84.9%). Children and parents ranged in age from 8 to 18 years old ($M=11.9$; $SD=3.10$) and 29 to 58 years old ($M=41.5$; $SD=5.7$), respectively. The mean time since diagnosis was 53.3 months. In 61.4% of the cases ($n=118$), the length of time since diagnosis was more than 24 months. Most of the children (88%, $n=169$) were on anti-epileptic medication and had not had seizures in the last nine months (65.6%, $n=126$). In terms of epilepsy severity, 52.9% ($n=101$) of them were assessed as presenting with low severity epilepsy, and 46.8% ($n=90$) with moderate/high severity epilepsy. Table 1 presents a summary of the demographic and clinical characteristics of the sample.

Table 1. Sociodemographic and clinical characteristics of the sample

| | M/n | SD/% |
|---|-------|-------|
| Children | | |
| Age (years) | 11.9 | 3.1 |
| Age-group | | |
| Children (8-12 years) | 115 | 59.9 |
| Adolescents (13-18 years) | 77 | 40.1 |
| Sex (male), n % | 96 | 50 |
| Age of epilepsy onset, y, M SD | 7.46 | 3.61 |
| Time since diagnosis (months), M SD | 53.32 | 40.97 |
| ≥24 months, n% | 118 | 61.4 |
| Epilepsy Syndrome type, n % | | |
| Generalized epilepsies | 68 | 36.4 |
| Localization-related (focal/partial epilepsies) | 27 | 14 |
| Focal onset and secondary generalization | 94 | 49 |
| Not determined whether focal or generalized | 3 | 1.6 |
| Seizure frequency (in the past 9 months), n % | | |
| No seizures | 126 | 65.6 |
| ≤ 1 seizure per month | 36 | 18.8 |
| ≥ 1 seizure per week | 14 | 7.3 |
| Not determined | 16 | 8.3 |
| On antiepileptic drugs, n % | 169 | 88 |
| Severity of Epilepsy, M SD | 2.73 | 1.17 |
| Low (1-2), n % | 101 | 52.9 |
| Moderate or Severe (3-7), n % | 90 | 46.8 |
| Not classifiable | 1 | .5 |
| Comorbidities, n % | | |
| Learning problems | 89 | 46.4 |
| Behavioral/Emotional problems | 87 | 45.4 |
| Family | | |
| Parent's age (years), M SD | 41.5 | 5.7 |
| Parent's sex, n% female | 163 | 84.9 |
| Parental marital status, n% married/living together | 161 | 83.9 |
| Socioeconomic status (SES), n% low | 110 | 57.3 |
| Parent's education (years), n% | | |
| 6 or less | 43 | 22.4 |
| 7 to 12 | 103 | 53.6 |
| More than 12 | 46 | 24.0 |

Preliminary analysis

Descriptive statistics and Pearson's correlations among study variables are presented in Table 2. Weak to moderate correlations were found among the main variables. At the individual level, family cohesion was negatively associated with perceived stigma and positively associated

with QoL for both parents and children. At the dyadic level, significant positive associations were found between parents' and children's perceptions of family cohesion, perceived stigma and QoL. Children's age was negatively associated with perceived stigma. The severity of epilepsy was positively associated with perceived stigma of parents and negatively associated with family cohesion and QoL of children. SES was positively associated with family cohesion for both children and parents, and with parents' QoL.

Table 2. Descriptive statistics and matrix of intercorrelations among study variables for children and parents

| Variables | Children | | | | | Parents | | | | | | |
|---------------------------------------|----------|--------|--------|-------|-------|---------|-------|--------|------|------|------|------|
| | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 | 8 | 9 | 10 | 11 | 12 |
| Children | | | | | | | | | | | | |
| 1. Family Cohesion | 1 | | | | | | | | | | | |
| 2. Perceived Stigma | -.30** | 1 | | | | | | | | | | |
| 3. HRQoL | .39** | -.60** | 1 | | | | | | | | | |
| 4. Age | -.07 | -.15* | .09 | 1 | | | | | | | | |
| 5. Sex ¹ | .11 | .07 | -.06 | -.01 | 1 | | | | | | | |
| Parents | | | | | | | | | | | | |
| 6. Family cohesion | .38** | -.10 | .27** | -.11 | -.16* | 1 | | | | | | |
| 7. Perceived stigma | -.12 | .24** | -.25** | .00 | -.10 | -.23** | 1 | | | | | |
| 8. QoL | .28** | -.06 | .24** | -.02 | -.08 | .59** | -.18* | 1 | | | | |
| 9. Age | -.06 | .00 | .08 | .35** | -.11 | -.02 | -.07 | .00 | 1 | | | |
| 10. Sex ¹ | .05 | .01 | .10 | -.02 | .10 | -.09 | -.05 | -.19** | -.12 | 1 | | |
| 11. SES ² | .10* | -.05 | .06 | -.11 | -.08 | .22** | .04 | .21** | .08 | -.14 | 1 | |
| 12. Severity of epilepsy ³ | -.17* | .13 | -.21** | .22** | .07 | -.13 | .20** | -.08 | .00 | .05 | -.01 | 1 |
| Cronbach's Alphas | .82 | .78 | .87 | — | — | .84 | .69 | .83 | — | — | — | — |
| Mean | 4.99 | 1.72 | 4.33 | 11.94 | — | 4.85 | 2.19 | 3.61 | — | — | — | 2.73 |
| Standard Deviations | .77 | .67 | .68 | 3.06 | — | .73 | .65 | .56 | — | — | — | 1.17 |

Notes. ** $p < .01$; * $p < .05$; ¹Male was coded for 0, Female was coded for 1; ²Low SES was coded for 0, Medium/high SES was coded for 1; ³Low severity was coded for 0, moderate/high severity was coded for 1.

Mediation Analyses

A path model was built to analyze the direct and indirect links via perceived stigma between family cohesion and QoL for children and parents. First, we tested a full model that showed good fit, $\chi^2(2, N=192)=.303; p=.859; RMSEA=.00, BC95\%CI=.00/.77, p=.409; CFI=1.00; SRMR=.016$. Next, we trimmed this model by removing non-significant paths. Figure 1 depicts the final trimmed mediation model, which also showed good fit, $\chi^2 (6)=3.123; p=.793; RMSEA=.00 (BC95\%CI=.00/.061, p=.919), CFI=1.00; SRMR=.030$. This final model explained 44% of children’s QoL and 34% of parents’ QoL.

The results (Table 3) showed that for children, family cohesion was associated with HRQoL via children’s perceived stigma ($\beta =.16, SE=.04 (BC95\%CI=.08/.25), p=.001$). For parents, perceived stigma did not mediate the link between family cohesion and QoL. At the dyadic level (partner effects), only direct effects were observed; more precisely, parents’ perceptions of family cohesion were linked to children’s HRQoL ($\beta =.14, SE=.07, p=.030$). Multigroup analyses confirmed that the aforementioned associations did not differ for dyads of children and parents in different age groups (children vs. adolescents) $\Delta\chi^2 (6)=3.25, p=.74$, epilepsy severity groups (low vs. mod./high), $\Delta\chi^2 (6)=10.53, p=.10$, or SES groups (low vs. med./high) $\Delta\chi^2 (6)=6.26, p=.40$.

Table 3. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediational model

| Estimated Parameters | Unstandardized coefficients (SE) | p value | BC bootstrap, 95% CI for indirect effects |
|----------------------------------|----------------------------------|---------|---|
| Direct effects (actor effects) | | | |
| Cohesion C→ Stigma C | -.25 (.06) | <.001 | |
| Cohesion C→ HRQoL C | .16 (.05) | .004 | |
| Stigma C→ HRQoL C | -.56 (.06) | <.001 | |
| Cohesion P→ Stigma P | -.20 (.06) | <.001 | |
| Cohesion P→ QoL P | .45 (.05) | <.001 | |
| Direct effects (partner effects) | | | |
| Cohesion P→HRQoL C | .13 (.06) | .030 | |
| Covariances | | | |
| Cohesion C ↔ Cohesion P | .21 (.04) | <.001 | |
| e(Stigma C) ↔ e(Stigma P) | .09 (.03) | .003 | |
| e(HRQoL C) ↔ e(QoL P) | .02 (.02) | .140 | |
| Indirect effects (actor effects) | | | |
| Cohesion C→HRQoL C | .14 (.04) | .001 | .07/.24 |

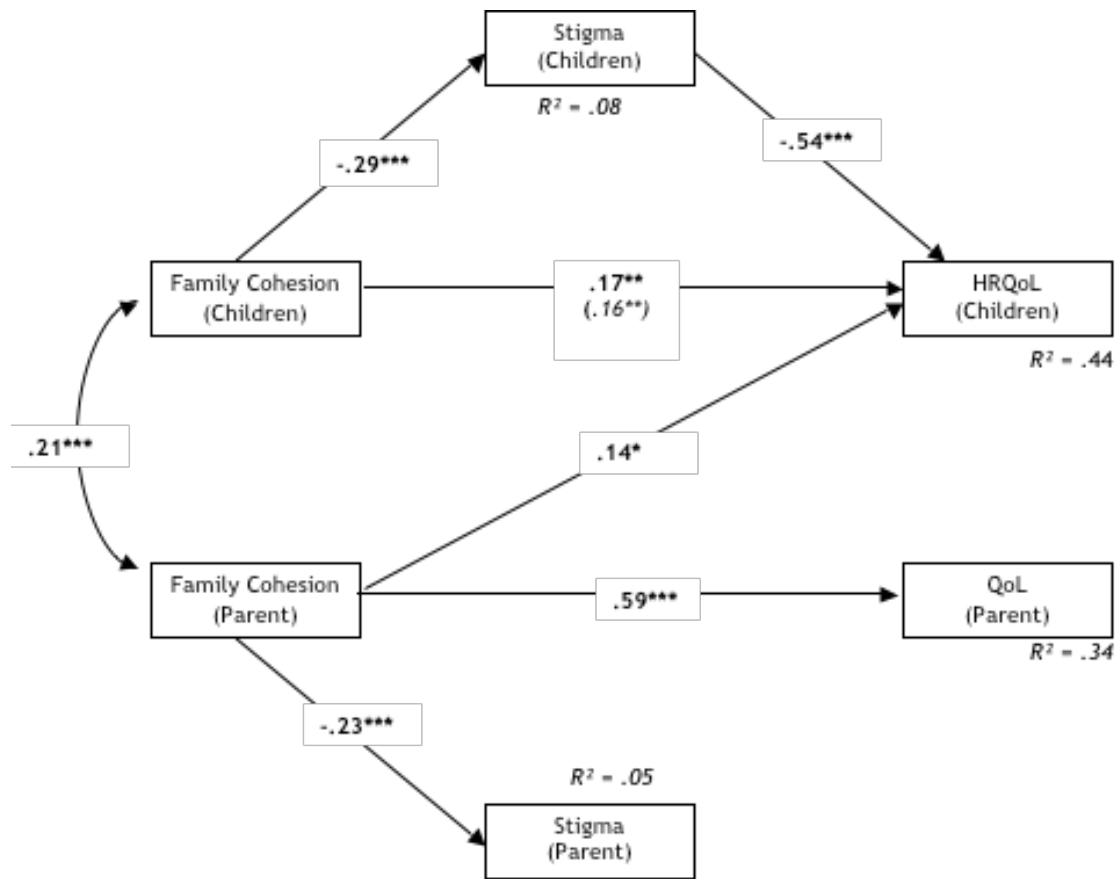


Figure 1. Path model testing the direct and indirect effects, via perceived stigma, between family cohesion and QoL for both children and parents (actor and partner effects).

Notes: Only significant paths are represented (final trimmed model). Bold figures represent standardized coefficients; Figures in parenthesis represent the standardized indirect effect. Fit indices for the model were as follows: $[(\chi^2(6)=3.123; p=.793; RMSEA=.00(BC95\%CI=.00/.06, p=.92, CFI=1.00; SRMR=.025)]$. For simplicity, error terms are not depicted. $^{***}p<.001$; $^{**}p<.01$; $^*p<.05$

Discussion

This study aimed to examine the interdependent relationships between children with epilepsy and their parents' appraisals of family cohesion and QoL and whether perceived stigma mediated these relationships. Hypothesized actor effects were mostly supported: when family cohesion levels were higher, both children and parents reported lower levels of stigma and better QoL. With regard to partner effects, we only found evidence for the significant role of parents' perceptions of family cohesion on children's HRQoL. Additionally, our key mediational hypothesis received partial support: family cohesion was positively linked to QoL, directly for children and parents, and indirectly for children and parents, and indirectly for children only, via the negative links with perceived stigma.

The final mediational model explained 44% and 34% of the variances in the HRQoL of children and the QoL of parents, respectively.

The positive links between family cohesion and QoL outcomes for both children and parents (actor effects) confirming our study's hypothesis 1 are consistent with an extensive body of research about the role of positive family interactions on individual family members' QoL within the context of pediatric epilepsy (e.g. Austin et al., 2014; Rodenburg et al., 2005; Shore et al., 2002). Significant partner effects were also found, but only from parents to children: the more parents perceived their family to be cohesive, the better the children assessed their HRQoL. Similar patterns have been found in the context of pediatric asthma (e.g. Crespo, Carona, Silva, Canavarró, & Dattilio, 2011) and cancer (e.g. Santos, Crespo, Canavarró, & Kazak, 2015). Two explanations can be offered for this partner effect. In fact, one of the most challenging tasks reported by parents is to encourage their child to talk about their epilepsy (McNelis et al., 2007). We may speculate that the more committed parents are to the needs of their family in general and to their children in particular, the more they are able to respond and take initiatives that may bring about a good balance between their child's need for emotional support and their quest for normalcy – knowing when it is appropriate to bring epilepsy to the family agenda (Verhey et al., 2009) and, thus, contributing to the child's improved HRQoL. Moreover, parents are known for their important role as mediators in the communication process among health agents, school agents, and children and in taking the initiative and making decisions regarding treatment (Wagner et al., 2009; K. Wu et al., 2008), behavior which ultimately influences children's HRQoL.

Our second hypothesis regarding a negative association between perceptions of stigma and QoL, was confirmed for both parents and children, although in the final mediational model, the relationship only remained significant for children. The detrimental role of perceptions of stigma for the HRQoL of children with epilepsy finds support in past research (Y. Wu et al., 2014). In fact, a substantial number of children and adolescents with epilepsy report fears of being different, of being subject to teasing and suffering from social isolation (Austin et al., 2014; Jacoby & Austin, 2007). Moreover, studies have shown that perceived stigma may function as a barrier to the access to and use of educational, medical and social services, and recreational activities (Painter et al., 2014; Wagner et al., 2009; K. Wu et al., 2008), a limitation that may have a negative impact on the HRQoL of children. Contrary to what had been predicted, parents' perception of stigma was not associated with children's HRQoL (partner effect). A possible explanation comes from studies that compare child self-report and parent-proxy reports of children's HRQoL, showing that greater discrepancies are found in the present worries and secrecy domains (Ronen et al., 2003; Verhey et al., 2009). It is plausible that when parents perceive their child is being stigmatized, they take specific action in order to minimize the impact

of stigma and optimize their child's HRQoL. Additionally, when children experience more stigma, they may not communicate it to parents, in order not to worry them, and/or because they want to keep normalcy in their lives.

The negative association between family cohesion and perceived stigma (hypothesis 3) is a novel finding in the field of pediatric epilepsy. Our results suggest that, within a cohesive family system, children and parents are less prone to perceive stigma. These results are in line with previous research showing that lack of information and emotional support regarding epilepsy constitute two important predictors of perceived stigma in children with epilepsy (McNelis et al., 2007). Contrary to expectations, family cohesion only had actor and not partner effects on stigma perceptions – how parents' or children individually perceived the cohesiveness of their family system did not significantly impact perceived stigma by the other member of the dyad. One possible explanation relies on the fact that low to moderate agreement is found between parent and child reports of perceptions and behaviors, in accordance with previous studies (Ronen et al., 2003; Verhey et al., 2009). This result underscores the importance of obtaining reports from both family members.

The mediation hypothesis (hypothesis 4) was partially confirmed. For children (but not for parents) stigma mediated the association between family cohesion and QoL. Our results suggest that children who perceive their family as more cohesive may feel more confident about their family's overall ability and availability to respond consistently and affectively to their fears and concerns about life in general, namely regarding epilepsy, a fact which may ultimately lead to better HRQoL. A less cohesive family environment, whether distant or conflictual, may limit opportunities for children to openly share and discuss their fears and uncertainties (e.g. possible reactions of others in case a seizure takes place, needs for additional information), thus leading to higher levels of perceived stigma and, consequently, lower HRQoL. The absence of this indirect effect for parents most likely reflects the relatively weak association between perceptions of stigma and QoL, which did not hold in the final mediational model. One possible explanation is that, in our study, parents were asked about their belief that their child was experiencing stigma or might experience stigma (parental proxy-reports of children's felt stigma), not the degree to which they themselves felt stigmatized due to their child's condition. Previous studies with caregivers of patients with concealable stigmatizable conditions (e.g., psychiatric disorders, Alzheimer's disease, HIV) have shown that a substantive percentage report feeling stigmatized through a process known as courtesy stigma (Liu, Xu, Lin, Shi, & Chen, 2013; Perlick et al., 2007). Stigmatized caregivers often suffer physical and mental health problems and avoid seeking potential sources of social support in order to fend off anticipated rejection and/or embarrassment which may lead to significant QoL impairments (Perlick et al., 2007). Additionally, there were differences in the assessment of QoL: parents reported on their generic QoL, and

children assessed their HRQoL. Whereas QoL is generally conceptualized as a broad assessment of well-being across various domains of life, the HRQoL construct is more sensitive to the specificities imposed by the presence of the chronic condition in the child's life, namely, stigma-related issues. Thus, the association between parental perceived stigma and QoL should be further examined in future studies.

The results of the present study are strengthened by the identification of the model's invariance across patients' age groups, epilepsy severity, and SES. Our findings suggest that positive family relationships seems to function as a resource factor for better QoL outcomes of children with epilepsy and their parents in families in different age groups, living with different levels of epilepsy severity and coming from both low and medium/high SES backgrounds.

These findings should be interpreted in the light of some limitations. First of all, although the paths tested in the mediation analysis were hypothesized according to the literature in the field (Kazak, 1989), it is possible that the relationship between stigma and family cohesion is bidirectional; the experience of stigma may also have a negative impact on family relationships. Given the cross-sectional research design, it is not possible to establish causality among the variables. Secondly, given the complexity of the hypothesized dyadic mediation model and the number of parameters to be estimated, the sample size, although large for a clinical sample, may have been insufficient to provide the necessary power to detect small effects. This could explain the absence of a significant path between parents' perceived stigma and their QoL. Thirdly, this study was limited to a Portuguese sample. The results may not be fully generalizable to other cultures, namely across Europe. European studies with adult patients with epilepsy found important cross-country differences at the level of felt stigma, knowledge about epilepsy and quality of medical care provided, with Portuguese patients reporting lower levels of felt stigma, compared to those in Poland or France (Baker et al., 2000; Doughty, Baker, Jacoby, & Lavaud, 2003; Malmgren et al., 2003). Relatedly, despite the multisite sampling process that combined families from three public hospitals of Portugal, and the fact that our sample's major clinical characteristics (e.g., epilepsy severity, seizure control, time since diagnosis) were comparable to those reported in other international studies with children with epilepsy (e.g., Speechley, 2008), the convenience sampling method used in the data collection prevented representativeness of all families of a child with epilepsy, potentially limiting external validity. Given that the majority of our sample is comprised of children with well controlled seizures and a long post-diagnosis course (on average 4 years), some caution must be placed when generalizing the results across the whole spectrum of epilepsies. Moreover, the majority of our sample (57.3%) comprised families belonging to low SES status. This percentage is representative of the families that seek medical treatment care in the Portuguese national health system. Lower SES is associated with lower HRQoL in pediatric chronic conditions, namely in childhood

epilepsy (Austin et al., 2004; Ferro, 2014). Economic challenges may result in restricted access to quality health care and medication. Finally, as in most studies of pediatric epilepsy involving family members, the majority of parents were mothers, which may obscure gender perspective differences. Caution must be used when generalizing the results to both parents.

Despite the aforementioned limitations, the present study builds upon and extends the current literature. Following well-established international recommendations, we adopted a multi-informant methodology, using both children and parent self-reports, in addition to neurologist reports of epilepsy variables. We addressed how children's and parents' perceptions of family cohesion, stigma and QoL were associated, using a dyadic data analytic strategy that allowed us to test both actor and partner effects. Finally, we identified stigma as a specific mechanism through which family resources could lead to better HRQoL outcomes in children.

Psychological interventions designed to promote positive family resources and open discussion of epilepsy-related stigma may help to enhance children's HRQoL. The present findings suggest that those in less supportive families may be most at risk for higher stigma and worse QoL outcomes and should be targeted for services. This is further supported by longitudinal studies that show that most changes in stigma and QoL outcomes occur during the first 6-9 months post diagnosis, and then tend to stabilize (Ferro et al., 2013; Ramsey et al., 2016; Rood et al., 2014). Given that parents and children may contribute to the silence around epilepsy and inadvertently relay a message that epilepsy should not be spoken about (Lambert et al., 2014; O'Toole et al., 2015), assisting families to appropriately engage in dialogue surrounding epilepsy, both with each other and others outside the family may be an important avenue for intervention (Lambert et al., 2014). Even if parents or children do not report stigma worries, clinicians should routinely ask families about this topic. These concerns may be particularly relevant in families whose children's seizure activity is less well-controlled, an important topic to be addressed in future research. Psychoeducational programmes targeting both children and parents should place special attention to worries around epilepsy-related stigma, explaining differences between real and perceived stigma; alerting for long-term implications of experiencing stigma; providing anticipatory guidance about how to best help family members to deal constructively with the child's seizures, namely, when dealing with others outside the family system, and what parents can do should their child experience stigma (Baulac et al., 2015).

In conclusion, our findings emphasize the role of family cohesion in explaining the QoL of children with epilepsy and their parents. They further identify perceptions of stigma as a specific mechanism that mediates this relationship for children and extends the current literature on childhood epilepsy. The relevance of adopting a family-centered model of care and of routinely directing assessment and intervention efforts in the area of family functioning and

stigma, especially among those patients experiencing poorer HRQoL, is highlighted by the present results.

References

Austin, J. K., MacLeod, J., Dunn, D. W., Shen, J., & Perkins, S. M. (2004). Measuring stigma in children with epilepsy and their parents: instrument development and testing. *Epilepsy & behavior*, 5(4), 472-482. doi:10.1016/j.yebeh.2004.04.008

Austin, J. K., Perkins, S. M., & Dunn, D. W. (2014). A Model for Internalized Stigma in Children and Adolescents with Epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 36, 74-79. doi:10.1016/j.yebeh.2014.04.020

Baker, G. A., Brooks, J., Buck, D., & Jacoby, A. (2000). The stigma of epilepsy: a European perspective. *Epilepsia*, 41(1), 98-104.

Barber, B. K., & Buehler, C. (1996). Family Cohesion and Enmeshment: Different Constructs, Different Effects. *Journal of Marriage and the Family*, 58(2), 433-441.

Baulac, M., Boer, H., Elger, C., Glynn, M., Kalviainen, R., Little, A., . . . Ryvlin, P. (2015). Epilepsy priorities in Europe: A report of the ILAE-IBE Epilepsy Advocacy Europe Task Force. *Epilepsia (Series 4)*, 56(11), 1687-1695. doi:10.1111/epi.13201

Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts, applications, and programming* (2nd ed.). New York, NY US: Routledge/Taylor & Francis Group.

Chan, C. M., Zou, G., Wiebe, S., & Speechley, K. N. (2015). Global assessment of the severity of epilepsy (GASE) Scale in children: Validity, reliability, responsiveness. *Epilepsia (Series 4)*, 56(12), 1950-1956. doi:10.1111/epi.13216

Crespo, C., Carona, C., Silva, N., Canavarro, M., & Dattilio, F. (2011). Understanding the Quality of Life for Parents and Their Children Who have Asthma: Family Resources and Challenges. *Contemporary Family Therapy*, 33(2), 179-196. doi:10.1007/s10591-011-9155-5

Doughty, J., Baker, G. A., Jacoby, A., & Lavaud, V. (2003). Cross-cultural differences in levels of knowledge about epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 44(1), 115-123. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.34402.x

Driscoll, K. A., Schatschneider, C., McGinnity, K., & Modi, A. C. (2012). Application of dyadic data analysis in pediatric psychology: cystic fibrosis health-related quality of life and anxiety in child-caregiver dyads. *Journal of pediatric psychology*, 37(6), 605-611. doi:10.1093/jpepsy/jss063

Ferro, M. A. (2014). Risk factors for health-related quality of life in children with epilepsy: a meta-analysis. *Epilepsia*, 55(11), 1722-1731. doi:10.1111/epi.12772.

Ferro, M. A., Camfield, C. S., Levin, S. D., Smith, M. L., Wiebe, S., Zou, G.Y., & Speechley, K. N. (2013). Trajectories of health-related quality of life in children with epilepsy: A cohort study. *Epilepsia (Series 4)*, 54(11), 1889-1897. doi:10.1111/epi.12388

Fiese, B., & Sameroff, A. (1989). Family context in pediatric psychology: a transactional perspective. *Journal of pediatric psychology*, 14(2), 293-314.

Hu, L., & Bentler, P. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 6(1), 1-55. doi:10.1080/10705519909540118

Jacoby, A., & Austin, J. K. (2007). Social stigma for adults and children with epilepsy. *Epilepsia*, 48 Suppl 9, 6-9. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01391.x

Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting Psychology*, 57(1), 25-30. doi:10.1037/0022-006x.57.1.25

Kenny, D., Kashy, D., & Cook, D. . (2006). *Dyadic data analysis*. New York: Guilford Press.

Lambert, V., Gallagher, P., O'Toole, S., & Benson, A. (2014). Stigmatizing feelings and disclosure apprehension among children with epilepsy. *Nursing Child Young People*, 26(6), 22-26. doi:10.7748/ncyp.26.6.22.e440.

Ledermann, T., Macho, S., & Kenny, D. (2011). Assessing Mediation in Dyadic Data Using the Actor-Partner Interdependence Model. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 18(4), 595-612. doi:10.1080/10705511.2011.607099

Liu, H., Xu, Y., Lin, X., Shi, J., & Chen, S. (2013). Associations between Perceived HIV Stigma and Quality of Life at the Dyadic Level: The Actor-Partner Interdependence Model. *PLoS One*, 8(2), e55680. doi:10.1371/journal.pone.0055680

Malmgren, K., Flink, R., Guekht, A. B., Michelucci, R., Neville, B., Pedersen, B., . . . Ozkara, C. (2003). The Provision of Epilepsy Care across Europe. *Epilepsia (Series 4)*, 44(5), 727-731. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.58402.x

McNelis, A., Buelow, J., Myers, J., & Johnson, E. (2007). Concerns and needs of children with epilepsy and their parents. *Clinical Nurse Specialist*, 21(4), 195-202.

Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family Environment Scale Manual* (2nd ed. ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.

O'Toole, S., Benson, A., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2015). Family communication in the context of pediatric epilepsy: A systematic review. *Epilepsy & behavior*, 51, 225-239. doi:10.1016/j.yebeh.2015.06.043.

Painter, E., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Changes in daily activity patterns of caregivers of children with newly diagnosed epilepsy: A case-controlled design. *Epilepsy & behavior*, *31*, 1-6. doi:10.1016/j.yebeh.2013.11.001

Perlick, D. A., Miklowitz, D. J., Link, B. G., Struening, E., Kaczynski, R., Gonzalez, J., . . . Rosenheck, R. A. (2007). Perceived stigma and depression among caregivers of patients with bipolar disorder. *The British Journal of Psychiatry*, *190*(6), 535-536. doi:10.1192/bjp.bp.105.020826

Ramsey, R. R., Loisel, K. A., Rausch, J. R., Harrison, J., & Modi, A. C. (2016). Predictors of trajectories of epilepsy-specific quality of life among children newly diagnosed with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, *57*, 202-210. doi:10.1016/j.yebeh.2016.02.002

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2005). Family factors and psychopathology in children with epilepsy: a literature review. *Epilepsy & behavior*, *6*(4), 488-503. doi:10.1016/j.yebeh.2005.03.006

Ronen, G. M., Streiner, D. L., & Rosenbaum, P. (2003). Health-related Quality of Life in Children with Epilepsy: Development and Validation of Self-report and Parent Proxy Measures. *Epilepsia (Series 4)*, *44*(4), 598-612. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.46302.x

Rood, J. E., Schultz, J. R., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Examining perceived stigma of children with newly-diagnosed epilepsy and their caregivers over a two-year period. *Epilepsy & behavior*, *39*, 38-41. doi:10.1016/j.yebeh.2014.08.004

Sanford, K., Bingham, C. , & Zucker, R. (1999). Validity issues with the Family Environment Scale: Psychometric resolution and research application with alcoholic families. *Psychological Assessment*, *11*(3), 315-325. doi:10.1037/1040-3590.11.3.315

Santos, S., Crespo, C., Canavaro, M. C., & Kazak, A. E. (2015). Family Rituals and Quality of Life in Children With Cancer and Their Parents: The Role of Family Cohesion and Hope. *Journal of pediatric psychology*, *40*(7), 664-671. doi:10.1093/jpepsy/jsv013

Schmidt, S., & European Disabkids Group. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich, Germany: Pabst Science Publishers.

Schmidt, S., Muhlan, H., & Power, M. (2006). The EUROHIS-QOL 8-item index: psychometric results of a cross-cultural field study. *European Journal of Public Health*, *16*(4), 420-428 doi:10.1093/eurpub/cki155

Shore, C. P., Austin, J. K., Huster, G. A., & Dunn, D. W. (2002). Identifying risk factors for maternal depression in families of adolescents with epilepsy. *Journal for specialists in pediatric nursing*, *7*(2), 71-80. doi:10.1111/j.1744-6155.2002.tb00153.x

Simões, M. (1994). *Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population*. (Unpublished doctoral dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & behavior*, *13*(2), 337-342. doi:10.1016/j.yebeh.2008.05.001

Verhey, L. H., Kulik, D. , Ronen, G. M., Rosenbaum, P., Lach, L., & Streiner, D. L. (2009). Quality of life in childhood epilepsy: what is the level of agreement between youth and their parents? *Epilepsy & behavior*, *14*(2), 407-410. doi:doi:10.1016/j.yebeh.2008.12.008

Wagner, J.L., Sample, P. L., Ferguson, P. L., Pickelsimer, E. E., Smith, G. M., & Selassie, A. W. (2009). Impact of pediatric epilepsy: voices from a focus group and implications for public policy change. *Epilepsy & behavior*, *16*(1), 161-165. doi:10.1016/j.yebeh.2009.07.008

Williams, J., & Mackinnon, D. P. (2008). Resampling and Distribution of the Product Methods for Testing Indirect Effects in Complex Models. *Struct Equ Modeling*, *15*(1), 23-51. doi:10.1080/10705510701758166

Wu, K. , Lieber, E., Siddarth, P., Smith, K., Sankar, R., & Caplan, R. (2008). Dealing with epilepsy: parents speak up. *Epilepsy & behavior*, *13*(1), 131-138. doi:10.1016/j.yebeh.2008.03.008

Wu, Y. , Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, *55*(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586

Estudo V

Family rituals in pediatric epilepsy: Links to parental competence and adaptation

Teresa Mendes • Carla Crespo • Joan Austin

2017, *Journal of Family Psychology* (in press)

<http://dx.doi.org/10.1037/fam0000359>

Family rituals in pediatric epilepsy: Links to parental competence and adaptation

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo² • Joan Austin³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

³Indiana University School of Nursing, University of Indiana, Indianapolis, USA.

Abstract

This cross-sectional study examined the associations between family ritual meaning and three indicators of parental adaptation (anxious and depressive symptoms and quality of life), via two dimensions of parental competence – satisfaction and efficacy, in parents of children with epilepsy. Two hundred Portuguese parents of children diagnosed with epilepsy for at least six months completed self-report measures assessing the main study variables. Our results showed that when parents reported stronger family ritual meaning, they also reported higher levels of parental satisfaction and efficacy, which were in turn were associated with lower psychological distress (anxious and depressive symptoms) and better quality of life of parents. This pattern of results was significant regardless of the severity of children's epilepsy, age group, and family socioeconomic level. In the context of pediatric epilepsy, empirical evidence was found for the role of family ritual meaning in being associated with parents' adaptation outcomes both directly and indirectly by higher levels of parental satisfaction and efficacy. Focusing intervention targets on what families naturally do and recognize as their own may be a favorable route to address those at risk of psychological distress and lower QoL.

Keywords: Family ritual meaning; pediatric epilepsy; parents; adaptation outcomes; parental satisfaction and efficacy

Introduction

Epilepsy is the most prevalent neurological condition during childhood and adolescent years, affecting 0.5-1% of children below age sixteen (Berg, Jallon, & Preux, 2013). Epilepsy is a spectrum of disorders, with a wide range of severities, seizure types and etiologies, that cause abnormal electrical activity in the brain resulting in an individual being predisposed to recurrent, unprovoked seizures (England, Liverman, Schultz, & Strawbridge, 2012; Fisher et al., 2014).

For most children with epilepsy, seizures are well controlled with anti-epileptic medication (Fisher et al., 2014). However, the impact of epilepsy goes well beyond seizures, affecting not only the child, but the entire family system (Ronen et al., 2010). The hidden, episodic and unpredictable nature and course of epilepsy represents a significant and permanent source of stress, threatening the stability of the family system (Austin et al., 2015; Ronen et al., 2010). Additionally, the high frequency of comorbidities such as learning difficulties and behavioral or emotional problems (Austin et al., 2010; Fastenau et al., 2004), the stigmatizing nature of the condition, and the potential for injury and death can curtail the social and leisure activities of the families and ultimately negatively impact children's and their parents' functioning across educational, emotional, social, and physical domains (Austin, Perkins, & Dunn, 2014; Painter, Rausch, & Modi, 2014).

Parenting a child or adolescent with epilepsy may be particularly challenging. Parents are at the front line for effective daily management of epilepsy, and studies have shown that parents of children with epilepsy are at increased risk for psychological distress, namely, clinical symptoms of depression and anxiety (C. Jones & Reilly, 2016; Shore, Austin, Huster, & Dunn, 2002) and poorer quality of life (QoL) (Reilly, Taft, Nelander, Malmgren, & Olsson, 2015). These difficulties may interfere with parents' ability to handle stress and cope with the demands of leading a family (Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2006; Wagner, Smith, & Ferguson, 2012; Wu, Follansbee-Junger, Rausch, & Modi, 2014) and therefore contribute to an increased risk of behavioral and emotional problems in children with epilepsy (Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011; Rodenburg et al., 2006).

Over the last decades, family research in the context of pediatric chronic conditions has shifted from a deficit-centered to a strengths-centered approach, which stresses the need to identify the resources available to families that promote individual adaptation and are also amenable to intervention (Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009; Rolland & Walsh, 2006). While the presence of a child with a chronic condition may disrupt normative family functioning, these

latter models suggest that most families are able to adapt and demonstrate considerable resilience. Family rituals may be considered one of these resources, as presented next.

Family rituals

Family rituals are events with symbolic and affective meaning that are shared by the whole family (Fiese & Parke, 2002; Fiese et al., 2002). Ranging from relatively informal and frequent patterned family interactions (e.g., dinnertime, bedtime, special weekend activities), to family traditions (e.g., vacations, birthdays) and celebrations that mark important family transitions (e.g., weddings, funerals) (Wolin & Bennett, 1984), family rituals are embedded in the cultural context of family life. Although most families engage in family rituals, they differ in the specific ways that they are practiced and the relative importance they have in their daily lives (Spagnola & Fiese, 2007). Meaningful family rituals are considered vital resources for families, particularly in times of increased stress or transition (Crespo et al., 2013; Fiese et al., 2002). Fostering stability, predictability, and structure to family life, meaningful family rituals promote participation and positive interactions and provide their members with a sense of security and belonging (Fiese & Wamboldt, 2000; Spagnola & Fiese, 2007; Wolin & Bennett, 1984). Within the field of pediatric chronic conditions, a growing body of empirical evidence shows that meanings ascribed to family rituals are associated with positive psychological outcomes such as fewer anxious and depressive symptoms and better quality of life for children, adolescents, and adults (Crespo et al., 2013; Denham, 2003; Fiese, 2007). More specifically, meaningful family rituals have been linked with improved QoL of parents and their children with pediatric cancer (Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2015), lower levels of anxious symptoms and family stress in pediatric asthma (Markson & Fiese, 2000), stronger family relationships (Crespo, Kielpikowski, Pryor, & Jose, 2011; Fiese et al., 2002), and better treatment adherence (Fiese & Wamboldt, 2000).

To date, the associations between family rituals meaning and the adaptation outcomes of parents of children with epilepsy are yet to be examined. Considering that the creation and maintenance of meaningful rituals needs to be understood in the context of a larger transactional process that evolves parents and children over time, Spagnola and Fiese (2007) identified parental competence as a potential mechanism linking family rituals and parental adaptation outcomes. More specifically, according to these authors, the symbolic meaning ascribed to family rituals may provide a window into how individuals form representations about how efficient they consider themselves in their parenting role, which ultimately may affect parental well-being. This hypothesized mechanism of influence still lacks empirical examination.

Parental competence

Parental competence has been considered a major determinant of effective parenting practices and is closely linked to positive child development and adaptation outcomes (Coleman & Karraker, 2000; T. L. Jones & Prinz, 2005). According to Johnston & Mash (1989), parental competence encompasses two distinct but interrelated dimensions: satisfaction and efficacy. Parental satisfaction is defined by Johnston and Mash (1989) as “the quality of affect associated with parenting” (p. 215). Parental satisfaction places the focus on the personal value, investment and interest that individuals attach to their performance as parents. The parenting role entails multifaceted challenges. Parenting a child can be a potentially satisfying and emotionally rewarding experience conducive to feelings of gratification and personal fulfillment while simultaneously being potentially exhausting, stressful, and emotionally tense (Coleman & Karraker, 2000). A second dimension of parental competence is parental efficacy, a more instrumental dimension of competence grounded in Bandura’s social cognitive theory (Bandura, 1995). Parental efficacy can be broadly defined as the beliefs and expectations that parents have about their ability to positively influence the behavior and course of their child’s development (Johnston & Mash, 1989). Parents who are high in efficacy believe in their ability to provide the social, cultural, and emotional support their children need to function successfully. Parental efficacy is reported to help parents cope with stressful and challenging situations. This dimension has been linked to positive child developmental outcomes (Coleman & Karraker, 2000); specifically, parental efficacy has been found to mediate the links among infant difficulty, social network characteristics (e.g., size, network support), and mothers’ mental health outcomes (Benson, 2016; Cutrona & Troutman, 1986). In addition, the ways in which parental competence are linked to the wider family environment have received increasing attention (T. L. Jones & Prinz, 2005). Parental competence, namely, parental efficacy, has been associated with more positive family functioning (Sevigny & Loutzenhiser, 2010), more favorable financial circumstances (Coleman & Karraker, 2000), and partner support and encouragement (Sevigny & Loutzenhiser, 2010).

Parenting a child with epilepsy raises additional issues, about how to best help children grow up, balancing their needs of protection and emotional support with the increasing urge for autonomy, while simultaneously meeting the needs of the entire family system and each of its individual members (McNelis, Buelow, Myers, & Johnson, 2007; Rodenburg et al., 2013). In a recent meta-analysis, Pinquart (2013) reported that compared to families with other chronic health conditions, families of children with epilepsy were at particular risk for difficulties at the level of parenting practices and parent-child relationships. Given the associations between

parental self-efficacy and parenting practices and behaviors, these results may reflect increased difficulties in parental competence. With a few exceptions, parental competence has scarcely been researched in the area of pediatric epilepsy. Austin and colleagues (2004) found that low parental confidence in managing children's behaviors, along with low family mastery (e.g., disorganized family environment), were significant predictors of child behavior problems.

Links between family rituals and parental adaptation: Examining the role of parental competence

Family rituals can be considered important contexts for parenting (Spagnola & Fiese, 2007). Bandura (1995) claimed that the "most effective way of creating a strong sense of efficacy is through mastery experiences" (p. 3). Effective parenting tends to enhance feelings of personal efficacy as a parent. It may be hypothesized that family rituals, embedded in the broader context of family functioning and relationships, may boost the odds that parents would feel satisfied and efficacious in their parenting role by offering structure, content, and meaning to the time and space involved in parenting. Therefore, as parents invest more time and effort in creating and maintaining special times together as a family, they may feel more competent in their role as a parent, thus leading to less psychological distress (i.e., anxious and depressive symptoms) and better QoL. This may be particularly relevant for parents of children with epilepsy who are faced with a host of non-normative challenges that require attention on the illness and can threaten the family's unity, stability, and identity.

Adopting a family systems framework (Kazak, 1989) that stresses interdependence between different levels in the family system, the present study aimed at: examining the associations between family ritual meaning and parental adaptation outcomes (anxious and depressive symptoms and QoL) in the specific context of families with children with epilepsy and testing the role of two dimensions of parental competence (satisfaction and efficacy) as possible avenues through which family rituals were linked to adaptation outcomes. We hypothesized that greater family ritual meaning would be associated with lower levels of psychological distress (anxious and depressive symptoms) and better QoL, both directly and indirectly, by fostering satisfaction and efficacy in the parental role.

Previous research in the field of pediatric epilepsy showed that parents from families facing higher economic challenges (Shore et al., 2002), whose children are older (Moreira et al., 2013) and/or with more severe epilepsies (Reilly et al., 2015) are at increased risk for psychosocial distress and lower QoL. Given our interest in examining a model that would apply to parents of children with different levels of epilepsy severity (low vs. moderate/high), child age

groups (children vs. adolescents), and socioeconomic status of the family (low vs. medium/high), we further tested if the proposed model was valid across each of the three subgroups.

Methods

Participants

Our sample comprised two hundred parents of children with epilepsy. The majority were mothers (85%), married/living together with a partner (83.5%), and 29 to 58 years old ($M=41.6$; $SD=5.8$). According to the classification system by Simões (1994) for the Portuguese context, 56.0% of participating families were of low socioeconomic status (SES, 56.0%); 40.5% were of medium SES, and 3.5% were of high SES. Their children with epilepsy were mostly boys (52.5%) aged between 8 and 19 years old ($M=12$, $SD=3.4$) who had been formally diagnosed for an average time of 53 months. According to clinical assessments made by pediatric neurologists, 53.5% of the children presented epilepsy of low severity, and 46.5% of the children presented epilepsy of moderate/high severity. Children were mostly on anti-epileptic drugs (87.5%, $n=175$) and were seizure-free for the last twelve months (64.5%, $n=129$).

Procedures

A consecutive sampling approach was adopted at the outpatient services of three Portuguese public hospitals between July 2012 and September 2014. The eligibility criteria included the following: (1) parent of a child with a clinical diagnosis of epilepsy for at least 6 months as established by a pediatric neurologist; (2) child aged 8 years old and above; (3) absence of major developmental delays in the child; and (4) parent who is referred to as the primary care provider for health-related issues. The Board of Directors of the participating institutions approved the present study. Potential participants were invited to participate in the study during the children's scheduled routine neurology appointment. The main researcher explained the study's aims and procedures to the families. Written informed consent was obtained from all parents who expressed interest in participating. Parents completed the questionnaires in a room designated for research purposes, and assistance was provided upon participants' request. The pediatric neurologists assessed epilepsy clinical variables by filling out a medical chart at the end of the child's medical appointment.

Measures

Family Ritual Meaning

Family ritual meaning was assessed with the Portuguese version of the Family Ritual Questionnaire (FRQ, Fiese & Kline, 1993, Portuguese version by: Crespo, Davide, Costa & Fletcher, 2008). Parents answered 10 forced-choice items covering family ritual meaning in two settings: dinnertime and annual celebrations (five items for each). Example items were “In some families, dinnertime is just for getting food/In other families, dinnertime is more than just a meal; it has special meaning”; “In some families, there are strong feelings at birthdays and other celebrations/In other families, annual celebrations are more casual; people are not emotionally involved.” Participants first chose the description that best represented their family and then decided whether that description was entirely true or partially true. The four possible answers were scored using a 4-point scale. A total score was computed from the average of the item scores. Higher scores indicated stronger perceptions of family ritual meaning. The Cronbach’s alpha for the current sample was .73.

Parenting Competence

Parenting competence was measured with the Portuguese version of the Parenting Sense of Competence (PSOC, Gibaud-Wallston & Wandersman 1978, cited in Johnston & Mash, 1989, Portuguese version by: Seabra-Santos et al., 2015). The PSOC focuses broadly on parents’ satisfaction with parenting and their self-efficacy in the parenting role and comprises two subscales. The satisfaction subscale includes nine items that assess the affective dimension of parenting, which is the degree to which the parent feels motivated and comfortable in that role (e.g., “Being a parent makes me tense and anxious”). The efficacy subscale includes seven items that assess the instrumental dimension of parenting, which is the extent to which parents believe they are capable of performing the parenting role well (e.g., “Being a parent is manageable, and any problems are easily solved”). Each item is answered on a 5-point scale ranging from 1 (I strongly disagree) to 5 (I strongly agree), with higher scores representing higher levels of parenting satisfaction and/or efficacy. Parents were asked to consider their general experiences of parenting in relation to the target child with epilepsy. The PSOC has demonstrated adequate psychometric proprieties (T. L. Jones & Prinz, 2005). In the current study, the Cronbach’s alpha values for the efficacy and satisfaction subscales were .75 and .74, respectively.

Adaptation Outcomes

Parents' anxious and depressive symptoms

The symptoms of anxiety and depression were evaluated using the Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS, Zigmond & Snaith, 1983; Portuguese version by: Pais-Ribeiro et al., 2007), consisting of two subscales: anxiety (n=7 items; e.g., "I am restless and cannot keep still") and depression (n=7 items; e.g., "I feel as though I am slowed down"). Each item is answered on a 4-point scale ranging from 0 (not at all/only occasionally) to 3 (most of the time/a great deal of the time), with higher scores representing higher levels of symptoms. A score of 8-10 is suggestive of the presence of a respective state, and a score of 11 or higher indicates the possible presence (or "caseness") of a mood disorder. In the present sample, the Cronbach's alpha coefficient values obtained for both anxiety and depression subscales were .83 and .77, respectively.

Parents' quality of life (QoL)

Parents' QoL was assessed with the Portuguese version of the EUROHIS-QOL (Schmidt, Muhlan, & Power, 2006, Portuguese version by Pereira, Melo, Gameiro & Canavarro, 2011). This 8-item measure (e.g., "How satisfied are you with your health") is a brief indicator of overall QoL and includes four domains (social, physical, psychological and environmental), which are represented by 2 items each. These items are answered on a 5-point scale ranging from 1 (not at all/very dissatisfied) to 5 (completely/very satisfied). Higher scores indicate better QoL. In the current sample, the Cronbach's alpha coefficient for this scale was .83.

Clinical characteristics of epilepsy

Child neurologists reported measures on epilepsy variables (e.g., time since diagnosis, seizure frequency, medication). The severity of epilepsy was assessed with the neurologist-reported Global Assessment of Severity of Epilepsy (GASE) (Speechley et al., 2008), which asks clinicians to rate their patients' overall epilepsy severity since their last visit using a 7-point scale based on their patients' current clinical situation and its impact on their daily life activities. Higher scores indicate more severe epilepsy. The GASE has demonstrated adequate validity and reliability (Speechley et al., 2008).

Sociodemographic information

The sociodemographic information was reported by the parent and included parents' and children's age and sex, parents' marital status, employment status, and education level. The SES of each family was classified into three levels (low, medium, high) according to an accepted

classification system for Portugal based on the parents' jobs and educational level (Simões, 1994). Most of our sample was comprised of families' belonging to the low SES, which is associated with lesser-qualified employees in construction or manufacturing, with less than a 9th grade education.

Data analyses

Preliminary descriptive statistics and correlations were computed for all study variables using the Statistical Package for the Social Sciences v. 21.0 (SPSS Inc., Chicago, IL, USA). Given the limited number of households belonging to the highest SES and the lack of homogenous distribution of the sample across the seven levels of epilepsy severity, both SES and epilepsy severity, respectively, were dichotomized into two levels: low ($n=112$, 56%) and medium/high ($n=88$, 44%) SES; and low (1-2; $n=107$, 53.6%) and moderate/high (3-7; $n=93$, 46.5%) epilepsy severity.

Using Structural Equation Modeling (SEM) with Analysis of Product Moments software (AMOS, v. 21.0), we built a path model to test the direct and indirect associations between family ritual meaning and parents' adaptation outcomes (anxious and depressive symptoms and QoL), via parental satisfaction and efficacy. Maximum-likelihood estimation procedures were used. Following Kline (2011), a model-generation application of SEM was adopted: after examining the results of the fully proposed model, we trimmed the model by removing non-significant paths using $p < .05$ as the criterion. The model's goodness of fit was assessed using the reference values for the main fit indices: non-significant χ^2 statistic, Comparative Fit Index (CFI) $\geq .95$, Root Mean Square Error of Approximation (RMSEA) and Standardized Mean Square Residuals (SRMR) $\leq .06$ (Hu & Bentler, 1999). The significance of the indirect paths linking family ritual meaning and the three parental adaptation outcomes via each of the two dimension of parental competence (efficacy and satisfaction) were tested via bootstrapping resampling procedures with 5,000 random samples (95% bias-corrected (BC) confidence interval) (Williams & Mackinnon, 2008). When indirect paths reached significance, a comparison of the strength of the each pair of indirect paths was performed with focus on estimate-based analyses (Amos Development Amos Development Team, 2010). In order to examine the invariance of the hypothesized model across epilepsy severity groups (low vs. moderate/high); SES (low vs. medium/high); and age groups (children vs. adolescents), three separate multi-group analyses were performed. In each case, the unconstrained model was compared to the model in which structural weights were constrained to be equal using the χ^2 difference method (Byrne, 2010). A model was considered invariant across the two groups if the χ^2 difference was non-significant.

Table 1. Descriptive statistics, matrix of intercorrelations among study variables and Cronbach's α values

| Variables | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 | 8 | 9 | 10 | Range | M (SD) | Cronbach's α s |
|-------------------------------------|---|-------|-------|--------|--------|--------|--------|-------|-------|--------|-------|-------------|-----------------------|
| 1.Ritual meaning | 1 | .33** | .16* | -.32** | -.31** | .45** | -.001 | .02 | -.02 | .20** | 1-4 | 3.46 (.47) | .73 |
| 2.Parental satisfaction | | 1 | .37** | -.45** | -.40** | .40** | -.03 | -.04 | -.14* | .11 | 1-5 | 3.61 (.56) | .74 |
| 3.Parental efficacy | | | 1 | -.17* | -.28** | .29** | -.22** | -.05 | -.12+ | -.04 | 1-5 | 3.70 (.55) | .75 |
| 4.Anxious symptoms | | | | 1 | .64** | -.65** | -.06 | .10 | .08 | -.16* | 0-3 | 1.22 (.57) | .83 |
| 5.Depressive symptoms | | | | | 1 | -.68** | .043 | .035 | .11 | -.19** | 0-3 | .70 (.50) | .77 |
| 6.QoL ¹ | | | | | | 1 | .013 | -.02 | -.08 | .23** | 1-5 | 3.62 (.55) | .83 |
| 7.Parent's Age | | | | | | | 1 | .36** | .049 | .094 | 29-58 | 41.6 (5.8) | — |
| 8.Child's age | | | | | | | | 1 | .24** | -.07 | 8-20 | 12 (3.2) | — |
| 9.Severity of epilepsy ² | | | | | | | | | 1 | -.04 | 1-7 | 2.28 (1.14) | — |
| 10.SES ³ | | | | | | | | | | 1 | 1-3 | - | — |

Note. ¹Quality of Life; ²Low severity of epilepsy is coded as 0; Moderate/high severity of epilepsy is coded as 1; ³ Low SES is coded as 0; Medium/high SES is coded as 1. *** $p < .001$ ** $p < .01$; * $p < .05$

Results

Descriptive statistics and correlations

Table I presents the descriptive statistics and the matrix of inter-correlations among study variables. Regarding associations among study variables, family ritual meaning was positively associated with parents' satisfaction ($r=.33$) and efficacy ($r=.16$), negatively associated with parents' anxious ($r=-.31$) and depressive ($r=-.31$) symptoms and positively associated with QoL ($r=.45$). Parents' age was negatively associated with parental efficacy ($r=-.22$), but not with parental satisfaction. A negative association was found between severity of epilepsy and parental satisfaction and efficacy. Additionally, SES was negatively associated with parents' anxious and depressive symptoms and positively associated with family ritual meaning and QoL. The percentage of parents scoring in the clinically significant range for depression was 7.5% ($n=15$), and for anxiety, the percentage was 24.5% ($n=49$).

Path model testing the direct and indirect links between family ritual meaning and parents' adaptation outcomes

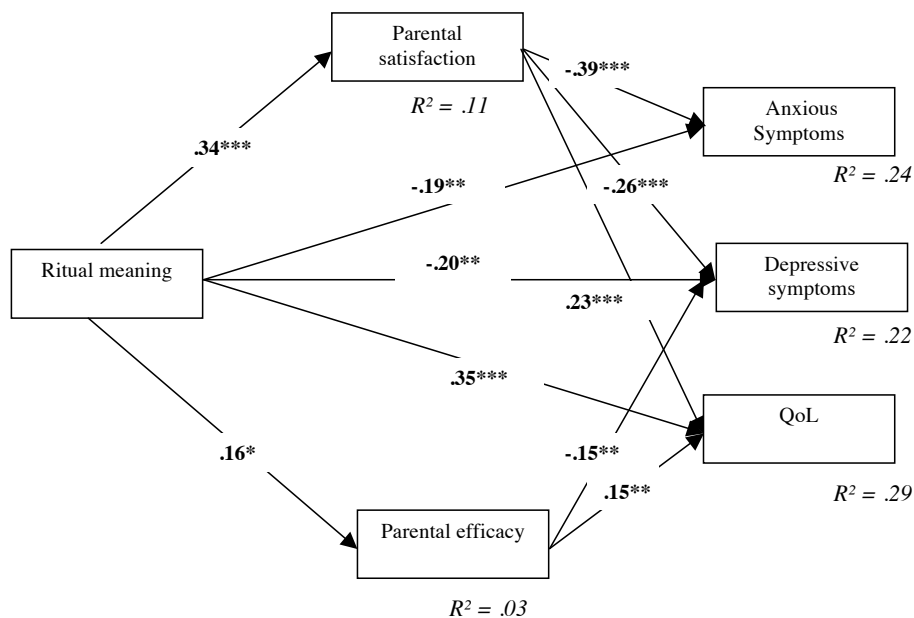


Figure 1. Mediational model (Trimmed, non-significant paths are not represented).

Note. Fit indices for the model are as follows: $\chi^2 (1)=0.00$, $p=.969$; RMSEA=.00, $p=.98$; CFI=1.00; SRMR=.001. Figures inside arrows represent standardized coefficients; italicized figures represent Pearson's correlation coefficients. For simplicity, covariances are not depicted; $^{***}p<.001$; $^{**}p<.01$; $^*p<.05$.

First, we tested a full model that assessed all the direct and indirect paths linking family ritual meaning, and the parents' anxious and depressive symptoms and QoL, via the two parental competence variables (satisfaction and efficacy). Next, given that the path parental efficacy→anxious symptoms revealed to be non-significant ($p=.99$), it was removed from subsequent analysis. The final trimmed model showed good fit indices: $\chi^2(1)=0.00$, $p=.97$; CFI=1.00; RMSEA=.00 (BC 95% CI=.00/.00, $p=.98$); and SRMR=.001, as depicted in Figure 1. The final model accounted for a significant percentage of the variability of the parents' anxious (24%) and depressive symptoms (22%) and QoL (29%). The three direct paths linking ritual meaning and each of the parental outcome variables (anxious and depressive symptoms, and QoL) were all significant. All tested indirect paths were significant. Family ritual meaning was associated with anxious symptoms via parents' satisfaction (BC 95% CI, [-.25, -.08], $p<.001$); with depressive symptoms via both parents' satisfaction (BC 95% CI, [-.16, -.05], $p<.001$) and efficacy (BC 95% CI, [-.06, -.01], $p=.02$); and with QoL via parents' satisfaction (BC 95% CI, [.05, .15], $p<.001$) and efficacy (BC 95% CI, [.01, .06], $p=.021$).

Table 2. Unstandardized coefficients and standard errors (SE) for all parameters and bias-corrected (BC) bootstrap confidence intervals (CI) for indirect effects of the final mediation model

| Estimated Parameters | Unstandardized coefficients (SE) | p value | BC bootstrap CI for indirect effects |
|---|----------------------------------|---------|--------------------------------------|
| Direct effects | | | |
| Ritual Meaning→Parental Satisfaction | .39 (.08) | <.001 | |
| Ritual Meaning→Parental Efficacy | .17 (.08) | .023 | |
| Ritual Meaning→Anxious symptoms | -.22 (.08) | .005 | |
| Ritual Meaning→Depressive symptoms | -.20 (.07) | .004 | |
| Ritual Meaning→QoL | .40 (.07) | <.001 | |
| Parental Satisfaction→Anxious symptoms | -.40 (.07) | <.001 | |
| Parental Satisfaction→Depressive symptoms | -.25 (.06) | <.001 | |
| Parental Satisfaction→QoL | .23 (.07) | <.001 | |
| Parental Efficacy→Depressive symptoms | -.15 (.06) | .008 | |
| Parental Efficacy→QoL | .17 (.06) | .005 | |
| Covariances | | | |
| e(Satisfaction)↔ e(Efficacy) | .09 (.02) | <.001 | |
| e(Anxious symptoms)↔ e(Depressive symptoms) | .12 (.02) | <.001 | |
| e(Anxious symptoms)↔ e(QoL) | -.13 (.02) | <.001 | |
| e(Depressive symptoms)↔ e(QoL) | -.12 (.02) | <.001 | |
| Indirect effects | | | |
| Ritual Meaning→Anxious symptoms (via Satisfaction) | -.15 (.04) | <.001 | [-.25, -.08] |
| Ritual Meaning→Depressive symptoms (via Satisfaction) | -.10 (.031) | <.001 | [-.16, -.05] |
| Ritual Meaning→Depressive symptoms (via Efficacy) | -.025 (.015) | .021 | [-.06, -.01] |
| Ritual Meaning→QoL (via Satisfaction) | .09 (.03) | <.001 | [.05, .15] |
| Ritual Meaning→QoL (via Efficacy) | .03 (.02) | .021 | [.01, .06] |
| Differences of strength of indirect effects | | | |
| Ritual Meaning→Depressive symptoms (via Satisfaction) ≠ | -.074 (.035) | .018 | [-.137, -.024] |
| Ritual Meaning→Depressive symptoms (via Efficacy) | | | |
| Ritual Meaning→QoL (via Satisfaction) ≠ | .060 (.036) | .069 | [.006, .125] |
| Ritual Meaning→QoL (via Efficacy) | | | |

When comparing the strength of the indirect paths, results showed that the indirect path from family ritual meaning to depressive symptoms via parental satisfaction was stronger than the path via parental efficacy (BC 95% CI, [-.14, -.02], $p < .018$) (Table 2). No significant differences in strength were found between the two indirect paths (via satisfaction and efficacy) linking family ritual meaning and QoL (BC 95% CI, [.01, .13], $p = .07$).

Multi-group analyses confirmed that this overall pattern of associations among family ritual meaning and parent's adaptation outcomes, via two dimensions of parental competence (parental satisfaction and parental efficacy), was valid across epilepsy severity groups $\Delta\chi^2(4) = 6.008$, $p = .199$; SES levels $\Delta\chi^2(10) = 11.56$, $p = .316$; and age groups $\Delta\chi^2(10) = 5.834$, $p = .829$.

Discussion

The present study expands past research on the links between whole-family processes and parents' individual adaptation in the context of pediatric chronic conditions. Two main conclusions may be derived from our findings. First, family ritual meaning was directly associated with parents' positive outcomes. When parents reported more family ritual meaning, they also considered themselves more satisfied and efficacious in their parental role and reported lower levels of anxious and depressive symptoms and higher QoL. Second, our key hypothesis was partially supported. Family ritual meaning was indirectly related to depressive symptoms and QoL via both parental satisfaction and efficacy. Regarding the links between family ritual meaning and anxious symptoms, evidence was found for indirect associations via parental satisfaction, but not via parental efficacy.

Links among family ritual meaning, parental competence and adaptation

To our knowledge, this was the first study conducted with parents of children with epilepsy to explore the associations between the meaning parents ascribed to family rituals and indicators of parental adaptation. Results showed that parents who scored higher in family ritual meaning presented less anxious and depressive symptoms and better QoL. These results are in line with past research in the broad context of pediatric chronic conditions, which shows that greater family ritual meaning is associated with lower levels of anxiety in parents of children with chronic health conditions, namely asthma and cancer (e.g. Markson & Fiese, 2000; Santos et al., 2015). Moreover, previous studies showed the relevance of positive family factors, namely, satisfaction with family relationships, family resources and mastery and the importance of families engaging in regular whole-family activities, for individual family members' adaptation (Austin et

al., 2010; Ferro et al., 2011; Shore et al., 2002). Differences in emotional investment in family rituals were associated with variations in satisfaction with family relationships, more precisely family cohesion (Santos et al., 2015). Results suggest that by engaging in more frequent and meaningful interactions, such as gathering for dinner on a regular basis and celebrating special occasions like religious holidays, family members' birthdays, and anniversaries of important dates for the family, parents may prompt a stronger sense of commitment and closeness between family members. Within this relational context, strains and uncertainties in the family are more likely to be shared, which can help parents deal with stress and consequently prevent or reduce anxious and depressive symptoms and improve their QoL (Crespo et al., 2013; Shore et al., 2002). In fact, regardless of idiosyncrasies, for many contemporary families across different cultures, such as Portuguese or US families, dinnertime may be the only consistent time when all family members gather together (Crespo et al., 2013). It is, thus, a privileged occasion for updates about the day, discussions about family matters and coordination of schedules and plans, providing an opportunity for parents to meet the emotional and informational needs of their child regarding life in general and eventually, epilepsy-related issues (Austin et al., 2014; Dickstein, 2002; McNelis et al., 2007).

Moreover, the positive relationship between family ritual meaning and the psychological health and QoL of the parents may also be related to the fact that family rituals may offer one avenue to promote a sense of control and constancy in the family (Wolin & Bennett, 1984, p.9). This fuels family life with moments where everyone knows what to expect and helps families put the disease in its place (Gonzalez, Steinglass, & Reiss, 1989). This may be particularly resourceful for families of children with epilepsy who must deal with unpredictability in the course and consequences of the medical condition.

Regarding the two dimensions of parental competence, satisfaction and efficacy, significant associations were found with parents' adaptation outcomes. This pattern of results is supported by previous studies conducted with community samples (Cutrona & Troutman, 1986; Porter & Hui-Chin, 2003) and samples of parents of children with chronic conditions, namely, diabetes (Streisand, Swift, Wickmark, Chen, & Holmes, 2005). In pediatric epilepsy, a significant negative association between parental competence and parents' depressive symptoms was reported by Rodenburg and colleagues (2006).

The positive associations between family ritual meaning and the two dimensions of parental competence (satisfaction and efficacy) are also novel findings. Past research showed that predictable family activities represent an important correlate of positive self-assessments in the area of parenting skills (Brody & Flor, 1997; Fiese et al., 2002; Sprunger, Boyce, & Gaines, 1985). The current results add to this body of research by suggesting that family rituals provide settings that are rich in family involvement and affective exchanges (Fiese et al., 2002) and that the

meaning that families ascribe to creating and maintaining special moments together such as family dinnertime or celebrations is associated with a sense of satisfaction in the parenting role. Parents with stronger convictions regarding the positive value of whole-family activities and events and positive expectations concerning family gatherings as satisfying and meaningful occasions tend to also feel more rewarded and motivated, upholding a higher sense of personal fulfillment in their role as parents. Another possible explanation is that by prioritizing certain family interactions and taking the initiative to fulfill those interactions in a way that provides structure, predictability and meaning to family life in the form of clear rules and expectations embedded in a caring and supportive family environment, parents may facilitate the conditions to meet their child's needs and foster their harmonious development, which is linked to parental efficacy and satisfaction. Additionally, parents who engage in more frequent family rituals, are more likely to become comfortable with the tasks and gain a sense of accomplishment, which then leads to greater ease in carrying out activities and a greater likelihood that they will be sustained over time (Brody & Flor, 1997; Porter & Hui-Chin, 2003).

Family ritual meaning and parents' adaptation: the indirect links via parental competence

Our findings generally supported the hypothesized direct and indirect associations between family ritual meaning and parental adaptation outcomes via two dimensions of parental competence: parental satisfaction and parental efficacy. Of the six examined indirect paths, only the path linking family ritual meaning, parental efficacy, and anxious symptoms did not hold in the final path model. A comparison of the strength of the indirect paths linking family ritual meaning and two of the parental outcomes (QoL and depression) only showed one difference. The indirect path from family ritual meaning to depressive symptoms via parental satisfaction was stronger than the path via parental efficacy. This result suggests that family rituals may promote better adaptation by both increasing satisfaction with the parenting role and by providing opportunities for parents to learn and perform parenting skills in an efficacious way. Family ritual meaning reflects how family members feel about being together at particular family gatherings (Fiese & Kline, 1993), and can be regarded as a barometer of family affective life and organization. Although everyone in the family participates in rituals, parents serve as the executive subsystem (Minuchin, 1974) and are most responsible for organizing and carrying out these events. Thus, when they are successful, they are more likely to feel satisfied and consider themselves to be doing a "good job" as parents. Specifically, in relation to depressive symptoms, rituals may be especially important due to the positive feelings and satisfaction they promote compared to the sense of efficacy.

The tested associations did not differ by children's epilepsy severity, family SES, or children's age group. Although more severe epilepsies may carry along increased demands over parents, namely regarding supervision, activity restrictions, dealing with stigma (Austin, Dunn, & Huster, 2000; Rodenburg et al., 2013), this does not seem to compromise the associations between the meaning ascribed to family rituals and parental adaptation outcomes. Similarly, data suggests that even in the presence of increased economic challenges, parents from families with low SES who put a bigger effort in promoting and preserving positive family relationships, tend also to feel more satisfied and confident and are also those who exhibit lower levels of anxious and depressive symptomatology and higher QoL. This finding is particularly relevant because Portugal is overcoming an economic crisis, which carried with it increased rates of unemployment and low incomes. In fact, most of our sample (57.3%) was comprised of families belonging to the low SES status, a percentage representative of the families who seek medical treatment care in the Portuguese national health system. Finally, with regard to children's ages, and despite the age-appropriate differences between children and adolescents, the role of rituals and parental competence on parents' adaptation proved to be equally valid for both groups of parents.

Limitations

The findings of this study must be interpreted in the context of some limitations. Assigning greater meaning to family rituals may be important ground on which to build a stronger sense of parental competence, but the hypothesis that competent parents may be more effective in creating family rituals is also a plausible one. In fact, in line with what Spagnola and Fiese (2007) have already reasoned, family ritual meaning and parental competence are probably bidirectional in the influence they exert on one another. Given the cross-sectional research design it is not possible to establish causality among the study variables. Only future longitudinal studies can disentangle the problem of the direction of the associations between family rituals and parental competence. Moreover, children and parents are linked in a transactional way throughout the children's development (Fiese & Sameroff, 1989); children who are more responsive to rituals may increase the likelihood that their parents would feel competent. Additionally, given that rituals are but one of many aspects of family life, it is possible that our findings can be explained by a third, more general and overarching construct, such as family competence (Crespo et al., 2011). Furthermore, although contemporary families in Western cultures similarly invest in daily rituals like gathering for dinner and for annual celebrations, it is possible that the ways in which family rituals are associated with individual and family outcomes vary according to cultural context. Future cross-cultural studies will be able to shed light on this question; thus, so far,

caution must be placed over the generalization of the present results to other cultures. Also, the biasing effects of relying on a single informant and on a single method of data collection calls for a recognition that, to some extent, the results may be due to shared method variance. Future studies should consider multi-informant assessments, since family experiences may be perceived by family members in different ways. Relatedly, given that most parents in our study were mothers; and the fact that sex differences in family ritual meaning and determinants of parental competence were found in previous research (Fiese & Kline, 1993; T. L. Jones & Prinz, 2005), caution must be used when generalizing results to both parents. Additionally, despite the multisite sampling process that combined families from three public hospitals of Portugal and the fact that our sample's major clinical characteristics (e.g., epilepsy severity, seizure control) were comparable to those reported in other international studies with children with epilepsy (e.g., Speechley et al., 2008), the convenience sampling method used in the data collection may have prevented representativeness of all families of a child with epilepsy, potentially limiting external validity. In this study, we did not include parents of children with severe, nonverbal cognitive problems who represent approximately one-third of families in the context of pediatric epilepsy (Shinnar & Pellock, 2002). Moreover, when performing the multigroup analysis to test the invariance of the indirect effects, the sample size of the groups under comparison dropped significantly, which may raise concerns regarding the adequacy of the analysis. The absence of disease-specific measures, namely at the level of parental efficacy in epilepsy management, can be regarded as a possible limitation of our study.

Implications for practice

Despite the aforementioned limitations, the present study builds upon and expands the current literature, and provides suggestions for future interventions. The relevance of adopting a family-centered model of care, and of routinely directing assessment and intervention efforts in the area of family functioning and parenting, especially among those parents experiencing higher psychological distress and poorer QoL, was highlighted in the present results.

Family rituals address the family as a whole, thus they present an advantageous route for intervention given the consensus that pediatric epilepsy is best understood and treated within the family context (Austin, 1996). Past studies showed that certain families find it hard to perform flexible and meaningful family rituals after being confronted with serious medical conditions, and that family rituals may be interrupted or put aside (e.g., Crespo et al., 2013; Fiese et al., 2002). Our results suggest, to the extent possible, helping families with a child with epilepsy recognize, and/or develop meaningful family rituals, may help them reduce anxious and depressive symptoms and promote parents' QoL, by improving their parental sense of

satisfaction and efficacy. Family rituals have the advantage of being easily recognized and talked by family members, and can be intentionally created or transformed to meet specific needs in the context of chronic condition management (e.g., daily medication intake requirements, behavior supervision). Discussing with families the meaning they ascribe to specific family rituals and identifying changes in family rituals due to the inscription of the medical condition in the family life, can be considered opportunities to address the issue of parental competence. In fact, family rituals may be regarded as privileged occasions for parents to both monitor and provide emotional support to their children, strengthening their parental role. Moreover, interventions targeting family rituals can improve family cohesion and communication, and propel a positive ripple effect at the parental and individual levels. Carrying out family rituals can also provide families with a sense of normalcy and continuity amid the disruption of family while adapting to the non-normative circumstances of living with a pediatric chronic condition like epilepsy (Crespo et al., 2013; Spagnola & Fiese, 2007). Finally, the parents, known as the “architects of the family” (Satir, 1983) also benefit when the family engages in rituals and is high on cohesion and they perceive themselves to be competent parents.

References

- Amos Development Team. (2010). Videos <http://amosdevelopment.com/video/>
Retrieved 15/01/2015
- Austin, J. K. (1996). A model of family adaptation to new-onset childhood epilepsy. *Journal of neuroscience nursing*, 28(2), 82-92.
- Austin, J. K., Dunn, D. W., & Huster, G. A. (2000). Childhood epilepsy and asthma: changes in behavior problems related to gender and change in condition severity. *Epilepsia*, 41(5), 615-623. doi:10.1111/j.1528-1157.2000.tb00217.x
- Austin, J. K., Dunn, D. W., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2004). Behavioral issues involving children and adolescents with epilepsy and the impact of their families: recent research data. *Epilepsy Behav*, 5 Suppl 3, 33-41. doi:10.1016/j.yebeh.2004.06.014
- Austin, J. K., Haber, L. C., Dunn, D. W., Shore, C. P., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2015). Children with new onset seizures: A prospective study of parent variables, child behavior problems, and seizure occurrence. *Epilepsy & behavior*, 53, 73-77. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.019
- Austin, J. K., Perkins, S. M., & Dunn, D. W. (2014). A Model for Internalized Stigma in Children and Adolescents with Epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 36, 74-79. doi:10.1016/j.yebeh.2014.04.020
- Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2010). Self-esteem and symptoms of depression in children with seizures: relationships with neuropsychological functioning and family variables over time. *Epilepsia*, 51(10), 2074-2083. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02575.x
- Bandura, A. (1995). Exercise of personal and collective efficacy in changing societies. In A. Bandura (Ed.), *Self-efficacy in changing societies* New York: Cambridge University Press.
- Benson, P.R. (2016). The longitudinal effects of network characteristics on the mental health of mothers of children with ASD: The mediating role of parent cognitions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46(5), 1699-1715. doi:10.1007/s10803-016-2699-3
- Berg, A.T., Jallon, P.F., & Preux, P.M. (2013). The epidemiology of seizure disorders in infancy and childhood: definitions and classifications. In M. Lassonde and H.B. Sarnat O. Dulac (Ed.), *Handbook of Clinical Neurology* (Vol. 111, pp. 391-398): Elsevier P.V.
- Brody, G.H., & Flor, D.L. (1997). Maternal psychological functioning, family processes, and child adjustment in rural, single-parent, African American families. *Developmental Psychology*, 33(6), 1000-1011. doi:10.1037/0012-1649.33.6.1000
- Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts, applications, and programming* (2nd ed.). New York, NY US: Routledge/Taylor & Francis Group.

Coleman, P.K., & Karraker, K.H. (2000). Parenting self-efficacy among mothers of school-age children: Conceptualization, measurement, and correlates. *Family Relations: An Interdisciplinary Journal of Applied Family Studies*, 49(1), 13-24. doi:10.1111/j.1741-3729.2000.00013.x

Crespo, C., Davide, I.N., Costa, M.E., & Fletcher, G.O. (2008). Family rituals in married couples: Links with attachment, relationship quality, and closeness. *Personal Relationships*, 15(2), 191-203. doi:10.1111/j.1475-6811.2008.00193.x

Crespo, C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Jose, P. E. (2011). Family rituals in New Zealand families: Links to family cohesion and adolescents' well-being. *Journal of Family Psychology*, 25(2), 184-193. doi:10.1037/a0023113

Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology*, 48(5), 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811

Cutrona, C.E., & Troutman, B.R. (1986). Social Support, Infant Temperament, and Parenting Self-Efficacy: A Mediational Model of Postpartum Depression. *Child Development*, 57(6), 1507-1518. doi:10.1111/1467-8624.ep7252276

Denham, S. A. (2003). Relationships between family rituals, family routines, and health. *Journal of Family Nursing*, 9(3), 305-330. doi:10.1177/1074840703255447

Dickstein, S. (2002). Family routines and rituals-The importance of family functioning: Comment on the special section. *Journal of Family Psychology*, 16(4), 441-444. doi:10.1037/0893-3200.16.4.441

England, M. J., Liverman, C. T., Schultz, A. M., & Strawbridge, L. M. (2012). Epilepsy across the spectrum: promoting health and understanding. A summary of the Institute of Medicine report. *Epilepsy Behav*, 25(2), 266-276. doi:10.1016/j.yebeh.2012.06.016

S1525-5050(12)00446-5 [pii]

Fastenau, P. S., Shen, J., Dunn, D. W., Perkins, S. M., Hermann, B. P., & Austin, J. K. (2004). Neuropsychological predictors of academic underachievement in pediatric epilepsy: moderating roles of demographic, seizure, and psychosocial variables. *Epilepsia*, 45(10), 1261-1272. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.15204.x

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011). The impact of maternal depressive symptoms on health-related quality of life in children with epilepsy: a prospective study of family environment as mediators and moderators. *Epilepsia*, 52(2), 316-325. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02769.x

Fiese, B. (2007). Routines and rituals: Opportunities for participation in family health. *OTJR: Occupation, Participation and Health*, 27(Suppl), 41-49. doi:10.1177/15394492070270s106

Fiese, B., & Kline, C.A. (1993). Development of the Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology, 6*(3), 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290

Fiese, B., & Parke, R. D. (2002). Introduction to the special section on family routines and rituals. *Journal of Family Psychology, 16*(4), 379-380. doi:10.1037/0893-3200.16.4.379

Fiese, B., & Sameroff, A. (1989). Family context in pediatric psychology: a transactional perspective. *Journal of pediatric psychology, 14*(2), 293-314.

Fiese, B., Tomcho, T., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology, 16*(4), 381-390. doi:10.1037/0893-3200.16.4.381

Fiese, B., & Wamboldt, F. (2000). Family routines, rituals, and asthma management: A proposal for family-based strategies to increase treatment adherence. *Families, Systems, & Health, 18*(4), 405-418. doi:10.1037/h0091864

Fisher, R. S., Acevedo, C., Arzimanoglou, A., Bogacz, A., Cross, J. H., Elger, C. E., . . . Wiebe, S. (2014). ILAE Official Report: A practical clinical definition of epilepsy. *Epilepsia (Series 4), 55*(4), 475-482. doi:10.1111/epi.12550

Gonzalez, S., Steinglass, P., & Reiss, D. (1989). Putting the illness in its place: discussion groups for families with chronic medical illnesses. *Family process, 28*(1), 69-87. doi:10.1111/j.1545-5300.1989.00069.x

Hu, L., & Bentler, P. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal, 6*(1), 1-55. doi:10.1080/10705519909540118

Johnston, C., & Mash, E.J. (1989). A measure of parenting satisfaction and efficacy. *Journal of Clinical Child Psychology, 18*(2), 167-175. doi:10.1207/s15374424jccp1802_8

Jones, C., & Reilly, C. (2016). Parental anxiety in childhood epilepsy: A systematic review. *Epilepsia, 57*(4), 529-537. doi:10.1111/epi.13326

Jones, T.L., & Prinz, R.J. (2005). Potential roles of parental self-efficacy in parent and child adjustment: a review. *Clinical Psychology Review, 25*(3), 341-363. doi:10.1016/j.cpr.2004.12.004

Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting Psychology, 57*(1), 25-30. doi:10.1037/0022-006x.57.1.25

Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Navsaria, N. (Eds.). (2009). *Families and other systems in pediatric psychology* (4th ed.). New York: Guilford Press.

Kline, R. (2011). *Principles and practice of structural equation modeling* (3rd ed.). New York, NY US: Guilford Press.

Markson, S., & Fiese, B. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of pediatric psychology, 25*(7), 471-479. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471

McNelis, A., Buelow, J., Myers, J., & Johnson, E. (2007). Concerns and needs of children with epilepsy and their parents. *Clinical Nurse Specialist, 21*(4), 195-202.

Minuchin, S. (1974). *Families and family therapy*. Cambridge, MA: Harvard University Press.

Moreira, H., Carona, C., Silva, N., Frontini, R., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2013). Psychological and quality of life outcomes in pediatric populations: a parent-child perspective. *Journal of pediatrics, 163*(5), 1471-1478. doi:10.1016/j.jpeds.2013.06.028

Painter, E., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Changes in daily activity patterns of caregivers of children with newly diagnosed epilepsy: A case-controlled design. *Epilepsy & behavior, 31*, 1-6. doi:10.1016/j.yebeh.2013.11.001

Pais-Ribeiro, J., Silva, I., Ferreira, T., Martins, A., Meneses, R., & Baltar, M. (2007). Validation study of a Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale. *Psychology, Health & Medicine, 12*(2), 225-235; quiz 235-227. doi:10.1080/13548500500524088

Pereira, M., Melo, C., Gameiro, S., & Canavarro, M. C. (2011). Estudos psicométricos da versão em Português Europeu do índice de qualidade de vida EUROHIS-QOL-8 [Psychometric studies of the European Portuguese version of the quality of life index EUROHIS-QOL-8]. *Laboratório de Psicologia, 9*(2), 109-123

Pinquart, M. (2013). Do the parent-child relationship and parenting behaviors differ between families with a child with and without chronic illness? A meta-analysis. *Journal of pediatric psychology, 38*(7), 708-721.

Porter, C. L., & Hui-Chin, H. (2003). First-Time Mothers' Perceptions of Efficacy During the Transition to Motherhood: Links to Infant Temperament. *Journal of Family Psychology, 17*(1), 54-64. doi:10.1037/0893-3200.17.1.54

Reilly, C., Taft, C., Nelander, M., Malmgren, K., & Olsson, I. (2015). Health-related quality of life and emotional well-being in parents of children with epilepsy referred for presurgical evaluation in Sweden. *Epilepsy & behavior, 5*, 310-314. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.025

Rodenburg, R., Meijer, A., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2006). Family predictors of psychopathology in children with epilepsy. *Epilepsia, 47*(3), 601-614. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00475.x

Rodenburg, R., Meijer, A., Scherphof, C., Carpay, J., Augustijn, P., Aldenkamp, A., & Dekovic, M. (2013). Parenting and restrictions in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior, 27*(3), 497-503. doi:10.1016/j.yebeh.2013.01.026

Rolland, J. S., & Walsh, F. (2006). Facilitating family resilience with childhood illness and disability. *Current Opinion in Pediatrics, 18*(5), 527-538. doi:10.1097/01.mop.0000245354.83454.68

Ronen, G. M., Streiner, D. L., Verhey, L. H., Lach, L., Boyle, M. H., Cunningham, C. E., . . . North American Pediatric Epilepsy, Q. O. L. Research Group. (2010). Disease characteristics and psychosocial factors: explaining the expression of quality of life in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 18(1-2), 88-93. doi:10.1016/j.yebeh.2010.02.023

Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2015). Family Rituals and Quality of Life in Children With Cancer and Their Parents: The Role of Family Cohesion and Hope. *Journal of pediatric psychology*, 40(7), 664-671. doi:10.1093/jpepsy/jsv013

Satir, V. (1983). *Conjoint Family Therapy* (3 rd. ed.). Palo Alto: CA: Science and Behavior Books.

Schmidt, S., Muhlan, H., & Power, M. (2006). The EUROHIS-QOL 8-item index: psychometric results of a cross-cultural field study. *European Journal of Public Health*, 16(4), 420-428 doi:10.1093/eurpub/cki155

Seabra-Santos, M.J., Major, S., Pimentel, M., Gaspar, M.F., Antunes, N., & Roque, V. (2015). Parenting Sense of Competence Scale (PSOC): Psychometric studies. *Avaliação Psicológica*, 14(1), 97-106. doi:10.15689/ap.2015.1401.11

Sevigny, P. R., & Loutzenhiser, L. (2010). Predictors of parenting self-efficacy in mothers and fathers of toddlers. *Child: Care, Health & Development*, 36(2), 179-189. doi:10.1111/j.1365-2214.2009.00980.x

Shinnar, S., & Pellock, J. M. (2002). Update on the epidemiology and prognosis of pediatric epilepsy. *Journal of child neurology*, 17(Suppl 1), S4-17. doi:10.1177/08830738020170010201

Shore, C. P., Austin, J. K., Huster, G. A., & Dunn, D. W. (2002). Identifying risk factors for maternal depression in families of adolescents with epilepsy. *Journal for specialists in pediatric nursing*, 7(2), 71-80. doi:10.1111/j.1744-6155.2002.tb00153.x

Simões, M. (1994). *Investigações no âmbito da aferição nacional do teste das Matrizes de Raven [Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population]*. (Unpublished Doctoral Dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Spagnola, M., & Fiese, B. (2007). Family Routines and Rituals: A Context for Development in the Lives of Young Children. *Infants & Young Children: An Interdisciplinary Journal of Early Childhood Intervention*, 20(4), 284-299.

Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & behavior*, 13(2), 337-342. doi:10.1016/j.yebeh.2008.05.001

Sprunger, L.W., Boyce, W.T., & Gaines, J.A. (1985). Family-infant congruence: Routines and rhythmicity in family adaptations to a young infant. *Child Development*, 56(3), 564-572. doi:10.1111/1467-8624.ep7252198

Streisand, R., Swift, E., Wickmark, Chen, R., & Holmes, C. S. . (2005). Pediatric Parenting Stress Among Parents of Children with Type I Diabetes: The Role of Self-Efficacy, Responsibility, and Fear. *Journal of pediatric psychology, 30*(6), 513-521. doi:10.1093/jpepsy/jsio76

Wagner, J.L., Smith, G., & Ferguson, P. (2012). Self-efficacy for seizure management and youth depressive symptoms: caregiver and youth perspectives. *Seizure, 21*(5), 334-339. doi:10.1016/j.seizure.2012.02.009

Williams, J., & Mackinnon, D. P. (2008). Resampling and Distribution of the Product Methods for Testing Indirect Effects in Complex Models. *Struct Equ Modeling, 15*(1), 23-51. doi:10.1080/10705510701758166

Wolin, S. J., & Bennett, L. A. (1984). Family rituals. *Family process, 23*(3), 401-420. doi:10.1111/j.1545-5300.1984.00401.x

Wu, Y. , Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia, 55*(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586

Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavia, 67*(6), 361-370. doi:10.1037/t03589-000

Estudo VI

“The psychological costs of comparisons”: Parents’ social comparison moderates the links between family management of epilepsy and children’s outcomes

Teresa Mendes • Carla Crespo • Joan Austin

2017, *Epilepsy & Behavior*, 75, 42-49

doi: 10.1016/j.yebeh.2017.07.017

“The psychological costs of comparisons”: Parents’ social comparison moderates the links between family management of epilepsy and children’s outcomes

Teresa Mendes¹ • Carla Crespo² • Joan Austin³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra, Portugal

²Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, Portugal

³Indiana University School of Nursing, University of Indiana, Indianapolis, USA.

Abstract

Parents play a key role in how children deal with epilepsy. When diagnosed with health conditions, people seek comparison information from fellow patients and families, and this information has consequences for how they evaluate their situation. This study examines the moderating role of parents’ social comparison orientation in the associations between family management (parental perceptions of family life difficulties and child’s daily life) and adaptation outcomes of children with epilepsy (HRQoL and perceived stigma). Participants included 201 dyads of children with epilepsy and either their mother or father. The results showed that when parents perceived higher difficulties managing their child’s epilepsy and/or reported that their child was more affected by this condition, children reported higher perceived stigma and worse HRQoL only when parents had a higher social comparison orientation. Our results are innovative in showing that when parents have a higher social comparison orientation, their children may be at increased risk of poorer outcomes.

Keywords: children with epilepsy; parents; family management; social comparison orientation; stigma; HRQoL.

Introduction

Epilepsy is a heterogeneous condition in terms of presentation and severity, with seizures varying from brief lapses of attention to long lasting and severe convulsions (R. S. Fisher et al., 2017; Scheffer et al., 2017). Dealing with pediatric epilepsy poses significant challenges to both children and their families. The latest international recommendations emphasize the importance of directing treatment efforts toward enabling children and their families to live a life as free as possible from the medical and psychosocial complications of epilepsy (Baulac et al., 2015; Ronen et al., 2010). However, even in Western industrialized countries, where most children with epilepsy benefit from appropriate anti-seizure drug treatment and attain seizure control, these children are at increased risk of poor health-related quality of life (HRQoL) (Ferro et al., 2013; Ramsey, Loiselle, Rausch, Harrison, & Modi, 2016). Children with epilepsy are also more vulnerable to the detrimental effects of perceived stigma (Austin, Perkins, & Dunn, 2014). Perceived stigma refers to the fear of being viewed as different from one's peers due to an undesired condition, such as epilepsy, and of being teased and bullied if a seizure occurs in front of others (Austin et al., 2014; Jacoby & Austin, 2007); this fear ultimately affects HRQoL (Mendes, Crespo, & Austin, 2017). The development of effective psychosocial interventions to improve children's HRQoL and prevent perceived stigma is warranted. A necessary step to achieve this goal is the identification of modifiable psychosocial factors that influence these outcomes.

Epilepsy is managed within the context of the children's family, with parents being on the front-line of effective family management of children's epilepsy (Y. Wu, Follansbee-Junger, Rausch, & Modi, 2014). Monitoring children's anti-seizure medication adherence, promoting healthy lifestyle behaviors, ensuring attendance of medical appointments, and providing the health care team with accurate information about seizures and treatment side-effects are some of the daily actions included within effective family management (Modi, 2009; Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2007). For families, epilepsy may represent a significant source of stress, even long after the disease onset and regardless of seizure control status (Shore, Buelow, Austin, & Johnson, 2009; Y. Wu et al., 2014). Despite its episodic nature, epilepsy entails ever-present threats to the physical, emotional, social, and academic domains of life of children and their families (Austin et al., 2015; Fastenau et al., 2004; Ramsey et al., 2016; Ronen, Streiner, & Rosenbaum, 2003). Living with epilepsy means dealing with the unpredictable nature and course of the condition; with the risk of physical injury during seizures; and with social stigma, despite the public efforts that have been made to improve awareness of epilepsy (Lambert, Gallagher, O'Toole, & Benson, 2014; Ronen et al., 2003).

Although most families attempt to normalize family life and reduce the intrusion of epilepsy in their lives after the initial diagnosis crises, some struggle to accomplish this (Knafl et al., 2013; Shore et al., 2009). Challenges to family management may include restrictions in family activities and isolation (Painter, Rausch, & Modi, 2014); difficulties attaining extended social support (Austin et al., 2015); difficulties managing the comorbidities of epilepsy (e.g., academic and behavioral difficulties), which are often unrecognized and remain untreated (Austin et al., 2011; K. Wu et al., 2008); difficulties working effectively with healthcare providers (McNelis, Buelow, Myers, & Johnson, 2007; K. Wu et al., 2008); eventual changes in family roles and unwanted impact on family relationships (Oostrom et al., 2005); unmet informational and emotional support needs for months to years after the diagnosis of seizure disorder (McNelis et al., 2007; Shore et al., 2009); and higher levels of psychiatric morbidity among family members (Ferro, Avison, Campbell, & Speechley, 2011; Jones & Reilly, 2016).

Parents play a key role in how children's epilepsy is managed within the family and how children with epilepsy understand and cope with their condition and the associated stigma (Benson et al., 2016). Research shows that in some families, the concerns caused by epilepsy may be more detrimental than the disease itself (e.g., Oostrom, Schouten, Kruitwagen, Peters, & Jennekens-Schinkel, 2001). A significant percentage of parents have a negative attitude and increased apprehensiveness toward epilepsy, even when not justified by the low severity of their child's illness (Cianchetti et al., 2015). The pervasive belief that epilepsy is a "bad" disease is deeply rooted in parents' fears and concerns (Cianchetti et al., 2015; Lambert et al., 2014). Despite that for most of the children affected, epilepsy entails a good clinical prognosis (Berg & Rychlik, 2015), lay people's perceptions of epilepsy are commonly attached to the dramatic presentation of generalized seizures and with the idea of chronic and incapacitating epilepsy (Jacoby, Snape, & Baker, 2005). Misunderstanding and insufficient information about the nature and consequences of epilepsy, often leads parents to the expectation of negative reactions and attitudes from others (Jacoby et al., 2005). These beliefs are accompanied by negative effects on how parents respond to their children's healthcare and emotional needs, resulting in negative consequences for children's adaptation outcomes over time (e.g., Rodenburg, Meijer, Dekovic, & Aldenkamp, 2006). Moreover, while some previous studies document stronger associations between levels of felt stigma and lower seizure control or specific seizure types (e.g., tonic-clonic) (Austin et al., 2015; Baker, Brooks, Buck, & Jacoby, 2000; Benson et al., 2016), others studies report that for some people with well-controlled (Cianchetti et al., 2015; Rood, Schultz, Rausch, & Modi, 2014) and/or focal seizures (Westbrook, Bauman, & Shinnar, 1992), felt stigma prevails. It is important to note that, although many types of focal seizures are relatively benign in clinical appearance, other types may be quite unpleasant to witness, especially if the behavior

is bizarre, or distressing to the individuals experiencing it (e.g., *deja vú*; illusions) (R. S. Fisher et al., 2017).

From the parents' perspective, a diagnosis of epilepsy represents an ongoing source of uncertainty and threat regarding their child's actual and future health status (McNelis et al., 2007; Oostrom et al., 2001). Studies in the health psychology field show that in situations of increased fear and/or uncertainty, patients and their families have a need for comparison information from others who are perceived to be similar or who are facing similar life circumstances (Bennenbroek, Buunk, van der Zee, & Grol, 2002; Blanchard, Blalock, DeVellis, DeVellis, & Johnson, 1999). Parents may actively or inadvertently engage in comparison processes when waiting for their children's clinical appointments, during conversations with their children's pediatrician, when consulting internet sites and educational materials, or when talking to other parents (Hodges & Dibb, 2010). Searching for and listening to comparison information from fellow families enables parents to evaluate their own situation (and that of their children), which ultimately may help them gain and maintain perceived control of the situation and increase well-being (Buunk et al., 2012; Hodges & Dibb, 2010).

Individuals differ in their propensity to engage in social comparisons, and this personality disposition is referred to as social comparison orientation (SCO, Gibbons & Buunk, 1999). Persons high in social comparison orientation are particularly inclined to compare their own situation and experiences with those of others (Buunk et al., 2012) and are more strongly affected by social comparisons (Gibbons & Buunk, 1999). While social comparisons can increase well-being (e.g., when comparing with others who are worse off), a growing body of evidence suggests that people who spontaneously make frequent social comparisons experience more destructive emotions and behaviors (Lyubomirsky, Tucker, & Kasri, 2001; White, Langer, Yariv, & Welch, 2006). In fact, the tendency to seek social comparison information is correlated with low self-esteem, depression and neuroticism (Gibbons & Buunk, 1999).

Despite the relevance of social comparison processes in different health contexts, the impact of parents' social comparison orientation on perceived stigma and HRQoL in children with epilepsy remains to be explored. The present study assessed a sample of 201 parent-child dyads to determine whether parent's social comparison orientation moderates the associations between parents' perceptions of family management (child daily life and family life difficulty) and their children's perceived stigma and HRQoL.

Method

Participants and procedures

The Board of Directors of three Portuguese public hospitals approved this study. The participants were children with epilepsy and one of their parents, and they were recruited at pediatric outpatient services. The eligibility criteria for study participation included the following: (1) a clinical diagnosis of epilepsy made by a pediatric neurologist at least 6 months prior to the study; (2) child age between 8 and 20 years; (3) absence of developmental delay or other non-neurologic conditions (e.g., asthma requiring daily medication); and (4) parent referred to as the primary care provider for health-related issues. Children with comorbid ADHD, specific learning difficulties or behavioral or emotional problems were included because of the high prevalence of these disorders in childhood epilepsy (Fastenau et al., 2004). Children with an IQ lower than 70 (according to their medical records) were excluded from the study, as were those not attending mainstream schools. Potential participants were invited to participate in the study during the children's routinely scheduled neurology appointment after a prior screening to determine whether they met the study's inclusion/exclusion criteria. Parents and children were informed that their participation was voluntary and would in no way affect the hospital care and/or level of support services their child received. Written informed consent and assent were obtained from each participating parent and child, respectively. Participants completed the questionnaires independently in a room designated for the study purposes on the day of their appointment. Children with reading difficulties received researcher assistance to complete the questionnaires. Neurologists assessed children's clinical variables at the end of the clinical visit.

Measures

Family management of children's epilepsy

Parents' perceptions regarding family management of children's epilepsy were assessed with the Portuguese version of the Family Management Measure (FaMM; Knafl et al., 2011). The FaMM is a self-report measure that addresses family caregivers' perceptions regarding dimensions of family life in the context of managing a child's chronic condition. Two specific scales were used: Child daily life (five items) and Family life difficulties (fourteen items). The items are answered on a five-point Likert scales ranging from 1 (strongly disagree) to 5 (strongly agree). The child daily life scale addresses parents' perceptions of their child's everyday life (e.g., "Our child's life is similar to that of other children his/her age"). Higher scores indicate that the

child lives a more normal life despite their chronic health condition. The family life difficulties scale assesses parents' perceptions of the extent to which their child's condition makes their life difficult (e.g., "Our child's condition gets in the way of family relationships"). Higher scores indicate more difficulty managing the condition and a family life focused on the work/effort of managing the condition. Empirical studies support the reliability and construct validity of the FaMM (Knafl et al., 2011). In the current sample, Cronbach's alpha of the Child Daily Life and Family Life Difficulties subscales were .73 and .86, respectively.

Social comparison orientation (SCO)

Parents' SCO was measured with the Portuguese version of the Iowa Netherlands Comparison Orientation Measure (INCOM, Gibbons & Buunk, 1999), which consists of 9 items that addresses a person's social comparison habits (e.g., "I often compare how my loved ones – boy- or girlfriend, family members, etc. - are doing with how others are doing"; "I always pay a lot of attention to how I do things compared with how others do things"). Responses are provided on a 5 point-scale, ranging from 1 (I disagree strongly) to 5 (I agree strongly). The higher the score is, the more the person compares him/herself with others and is affected by social comparisons. The INCOM has been shown to be a reliable and valid measure with good reliability (e.g., Buunk, Belmonte, Peiró, Zurriaga, & Gibbons, 2005; Gibbons & Buunk, 1999). Cronbach's alpha of the SCO scale in the current sample was .82.

Children's perceived stigma

Children's perceived stigma was assessed using the Portuguese version of the Child Stigma Scale (Austin, MacLeod, Dunn, Shen, & Perkins, 2004), an eight-item instrument in which children are asked to indicate how often they had feelings related to internalized stigma (e.g., feeling different, being embarrassed about having seizures, avoiding disclosure) on a 5-point scale ranging from 1 (*strongly disagree*) to 5 (*strongly agree*). Item scores are summed and then averaged to generate a total stigma score, with higher scores representing greater perceived stigma. This scale has demonstrated adequate internal consistency, reliability and construct validity in previous studies (Austin et al., 2004). In the current sample, the alpha coefficient for this scale was .77.

Children's HRQoL

Children's HRQoL was assessed with an abbreviated patient version of the Portuguese DISABKIDS Chronic Generic Measure (DCGM) (Schmidt & European Disabkids Group, 2006). The 12 items of the DCGM measure the perceived impact of the chronic health condition and treatments on patients' lives (e.g., "Does your condition bother you while you play or do other things?"). The questionnaire was answered using a 5-point Likert scale ranging from 1 (*never/not at all*) to 5 (*always/extremely*). Higher scores indicate better children's HRQoL. Cronbach's alpha of the DCGM in the current sample was .87.

Clinical variables

Neurologists reported on epilepsy variables (e.g., age of epilepsy onset, time since diagnosis, seizure type and frequency, medications) by completing a medical chart specifically designed for this study at the end of clinical visits. The severity of epilepsy was assessed with the neurologist-reported Global Assessment of Severity of Epilepsy (Speechley et al., 2008), which asks clinicians to rate the overall severity of patients' epilepsy since their last visit using a 7-point scale, considering the patients' current clinical situation (seizure frequency, medication requirements and side effects) and impact on daily life activities. Higher scores indicate more severe epilepsy. The GASE has demonstrated adequate validity and reliability (Speechley et al., 2008).

Sociodemographic information

Sociodemographic information was reported by the parent and included parents' and children's age and sex, parents' marital status, employment status and education level. The socioeconomic status (SES) of each family was classified into three levels (low, medium, high) according to an accepted classification system in Portugal based on the parents' jobs and educational level (Simões, 1994). Most of our sample consisted of families in the low SES, which is associated with less qualified employees with less than 9 years of school education.

Data analyses

To identify relevant clinical and demographic variables, correlations between study variables and multivariate analysis of variance (MANOVA) with children's perceptions of stigma

and children's HRQoL as the dependent variables were conducted to identify relevant sociodemographic (dichotomized family SES, child's sex and age group) and clinical covariates (time since diagnosis, dichotomized seizure control status, epilepsy severity). A series of hierarchical multiple regressions were then performed to separately examine the main and interaction effects of parents' perceptions of child daily life/family life difficulties and parents' SCO on children's perceived stigma and HRQoL. Prior to estimating model moderation, both the predictor and the moderator variables were mean-centered to reduce multicollinearity (Hayes, 2013). Epilepsy severity was entered first as a covariate, followed by the predictor, the moderator (SCO), and the interaction term between the predictor and the moderator. Four regressions were separately conducted, two for each independent variable. *Post hoc* tests of significant moderation effects were then conducted to identify the levels of parent's SCO at which the moderation effect was significant. Data analyses were performed using Statistical Package for the Social Sciences v.24.0 (SPSS Inc., Chicago, USA) and Process module (Hayes, 2013). Zero-order correlations between study variables were calculated. Significance was set at the .05 level. The analyses were sufficiently powered to detect small to medium moderation effects.

Results

Sample characteristics

The study sample comprised 201 children with epilepsy, all Caucasian, and their mother or father (mainly mothers, 85.1%). Children and parents ranged in age from 8 to 20 years old ($M=12.1$; $SD=3.23$) and 29 to 58 years old ($M=41.6$; $SD=5.8$), respectively. Most parents were married/living together with a partner (83.1%) and came from low SES backgrounds (56.2%). The mean time since diagnosis was 53.3 months; in 67.7% ($n=136$), the length of time since diagnosis was more than 24 months. Most of the children (87.6%, $n=176$) were using anti-seizure medication and had not had seizures for the last nine months (64.2%, $n=129$). In terms of severity, 53.2% ($n=107$) were assessed as presenting with low-severity epilepsy, and 46.8% ($n=94$) with moderate/high-severity epilepsy. A summary of the demographic and clinical characteristics of the sample is shown in Table I.

Table 1 - Sociodemographic and clinical characteristics of the sample (N=201 dyads)

| Characteristics | Mean (SD) or n (%) |
|---|--------------------|
| Children with epilepsy | |
| Age (years), <i>M (SD)</i> | 12.07 (3.23) |
| Age group, <i>n (%)</i> | |
| Children (8-12 years) | 119 (59.2) |
| Adolescents (13-20 years) | 62 (40.8) |
| Sex (male) <i>n (%)</i> | 106 (52.7) |
| Age of epilepsy onset, years, <i>M (SD)</i> | 7.53 (3.60) |
| Time since diagnosis (months), <i>M (SD)</i> | 53.26 (42.73) |
| Epilepsy syndrome type, <i>n (%)</i> | |
| Generalized epilepsies | 70 (34.82) |
| Localization-related (focal/partial epilepsies) | 29 (14.43) |
| Focal onset and secondary generalization | 99 (49.25) |
| Not determined whether focal or generalized | 3 (1.49) |
| Seizure frequency (in the past 9 months), <i>n (%)</i> | |
| No seizures | 129 (64.2) |
| Less than one seizure per year | 24 (11.9) |
| One or less than one seizure per month | 14 (7.0) |
| ≥1 seizure per week | 8 (4) |
| Not determined | 19 (9.5) |
| On antiepileptic drugs, <i>n (%)</i> | 176 (87.6) |
| On VPA | 88 (43.8) |
| On LVT | 23 (11.4) |
| Mono | 158 (78.6) |
| Two AED | 24 (11.8) |
| More than two AED | 4 (2) |
| Severity of epilepsy (GASE, range 1-7), <i>M (SD)</i> | 2.69 (1.14) |
| Low/mild (1-2), <i>n (%)</i> | 107 (53.2) |
| Moderate or severe (3-7), <i>n (%)</i> | 94 (46.8) |
| Comorbidities, <i>n (%)</i> | |
| Learning problems | 89 (46.4) |
| requiring Special Education Services | 46 (22.9) |
| Behavioral/emotional problems | 87 (45.4) |
| Family | |
| Parent's age, years, <i>M (SD)</i> | 41.6 (5.8) |
| Parent's sex, <i>n (%)</i> female | 171 (85.1) |
| Parent's marital status, <i>n (%)</i> married/living together | 167 (83.1) |
| Socioeconomic status (SES), <i>n (%)</i> low SES | 113 (56.2) |
| Education, <i>n (%)</i> more than nine years | 51 (23.4) |

Descriptive statistics and correlations between study variables

Table 2 presents the descriptive statistics and correlations between the study variables. Parental perceptions of child daily life were positively correlated with HRQoL and negatively correlated with perceived stigma. By contrast, parental perceptions of family life difficulties were negatively correlated with HRQoL and positively correlated with perceived stigma. Parents with higher SCO showed higher levels of family life difficulties, and their children showed more negative adaptation outcomes (higher perceived stigma and lower HRQoL). No significant relationships were found between parents' SCO and their perceptions of their child's daily life.

Table 2 - Descriptive statistics and matrix of intercorrelations between study variables

| Variables | 1 | 2 | 3 | 4 | 5 | 6 | 7 | 8 | 9 | 10 | 11 | 12 |
|---|--------|--------|-------|--------|--------|------|-------|-------|--------|-------|-----|----|
| Parents | | | | | | | | | | | | |
| 1. Child daily life | 1 | | | | | | | | | | | |
| 2. Family life difficulties | -.61** | 1 | | | | | | | | | | |
| 3. Social comparison orientation (SCO) | -.03 | .26** | 1 | | | | | | | | | |
| Children | | | | | | | | | | | | |
| 4. Perceived stigma | -.17* | .23** | .16* | 1 | | | | | | | | |
| 5. HRQoL | .25** | -.33** | -.18* | -.60** | 1 | | | | | | | |
| 6. Sex ¹ | -.04 | .03 | -.15* | .08 | -.04 | 1 | | | | | | |
| 7. Age | -.25** | .19** | -.04 | -.14 | .07 | -.02 | 1 | | | | | |
| 8. Parent's age | -.12 | .09 | .01 | .01 | .07 | -.07 | .36** | 1 | | | | |
| 9. Epilepsy severity | -.38** | .31** | .11 | .19** | -.27** | .04 | .22** | .12 | 1 | | | |
| 10. Time since diagnosis | -.09 | .14* | .10 | .04 | -.04 | -.04 | .44** | .17* | .28** | 1 | | |
| 11. SES ² | .19** | -.31** | -.08 | -.07 | .08 | -.09 | -.08 | .09 | -.02 | -.05 | 1 | |
| 12. Seizure control status ³ | .26** | -.11 | .06 | .00 | .10 | -.04 | -.02 | .00 | -.29** | -.08 | .01 | 1 |
| Cronbach's Alpha | .73 | .86 | .82 | .77 | .87 | — | — | — | — | — | — | — |
| Mean | 4.22 | 2.18 | 3.04 | 1.72 | 4.34 | — | 12.07 | 41.59 | 2.69 | 53.26 | — | — |
| Standard Deviation | .69 | .63 | .59 | .66 | .67 | — | 3.23 | 5.79 | 1.14 | 42.73 | — | — |

Notes. ** $p < .01$; * $p < .05$;

¹Male was coded as 0, Female was coded as 1; ²Low SES was coded as 0, Medium/high SES was coded as 1; ³Non-achieved seizure control was coded as 0, achieved seizure control was coded as 1.

Table 3 - Hierarchical multiple regressions: Predicting children's perceived stigma and children's HRQoL from parents' perceptions of child daily life and of family life difficulties

| | Dependent variable: Children's perceived stigma | | | | | | | Dependent variable: Children's HRQoL | | | | | | |
|--|---|------|-------------------|----------------|-------------------------------|---------------------------|-------------------------|--------------------------------------|------|---------|----------------|-------------------------------|--------------------------|-------------------------|
| | B | SE B | β | R ² | R ² _{adj} | F | Δ R ² | B | SE B | β | R ² | R ² _{adj} | F | Δ R ² |
| VI=Parents' perceptions of child daily life (CDL) | | | | | | | | | | | | | | |
| Step 4 | | | | | | | | | | | | | | |
| | | | | .112 | .094 | F(1, 196)=9.75, p=.002 | .044 | | | | .145 | .127 | F(1,196)=4.83, p=.029 | .021 |
| Constant | 1.72 | .044 | | | | | | 4.34 | .044 | | | | | |
| Epilepsy severity | .092 | .042 | .143 ⁺ | | | | | -.11 | .04 | -.19** | | | | |
| Parents' perceptions of CDL | -.104 | .069 | -.11 | | | | | .17 | .04 | .18* | | | | |
| Parents' SCO | .151 | .075 | .137* | | | | | -.17 | .07 | -.15* | | | | |
| Interaction CDL*SCO | -.317 | .102 | -.21** | | | | | .225 | .10 | .15* | | | | |
| VI=Parents' perceptions of family life difficulties (FLD) | | | | | | | | | | | | | | |
| Step 4 | | | | | | | | | | | | | | |
| | | | | .112 | .094 | F(1,196)=6.89, p=.009 | .031 | | | | .167 | .150 | F(1,196)=4.01, p=.046 | .017 |
| Constant | 1.69 | .05 | | | | | | 4.36 | .05 | | | | | |
| Epilepsy severity | .08 | .04 | .13 ⁺ | | | | | -.11 | .04 | -.18** | | | | |
| Parents' perceptions of FLD | .14 | .08 | .14 ⁺ | | | | | -.24 | .08 | -.23** | | | | |
| Parents' SCO | .11 | .08 | .10 | | | | | -.10 | .08 | -.09 | | | | |
| Interaction FLD*SCO | .29 | .11 | .18* | | | | | -.22 | .11 | -.13* | | | | |

Notes. **p<.01; *p<.05; +p<.10

Moderation analyses

Prior to the moderation analyses, we aimed to identify significant demographic and clinical variables to include in the regressions as covariates. Multivariate analyses of variance (MANOVAs) were used with categorical variables (dichotomized SES, child's and parent's sex, dichotomized seizure control), and correlations were calculated for the following variables: epilepsy severity, child's and parent's age and time since diagnosis. Multivariate analysis of variance (MANOVA) results showed that HRQoL and perceived stigma did not differ as a function of family dichotomized SES, parent's age, child's sex and age, time since diagnosis or seizure control; therefore, these variables were not included in subsequent models. Only epilepsy severity was significantly correlated with children's perceived stigma ($r=.20$, $p=.005$) and HRQOL ($r=-.27$, $p<.001$) and was therefore included as a covariate in all subsequent analyses. The results of the regression analyses examining main and interaction effects are presented in Table 3. Next, we present the results for each of the examined outcomes.

Children's perceived stigma

Considering parental perceptions of child daily life as the independent variable, in step 4, a main effect was found for parent's SCO ($B=.15$, $p=.045$) but not for parental perceptions of child daily life. The child daily life * parents' social comparison orientation (SCO) interaction term accounted for a unique amount of variance in children's perceived stigma ($F(1, 196)=9.75$, $p=.002$, $R^2=.044$). *Post hoc* simple slope analyses (see Figure 1) revealed that more negative parental perceptions of child daily life were associated with higher levels of children's perceived stigma, but only when parents reported higher levels of SCO ($B=-.29$, $SE B=.09$, $t=-3.20$, $p=.002$), and not when parents had moderate ($B=-.10$, $SE B=.07$, $t=-1.51$, $p=.133$) or lower levels ($B=.08$, $SE B=.09$, $t=.922$, $p=.358$) of SCO.

When parental perceptions of family life difficulties were entered as the independent variable, in step 4, no main effects were found. Only the family life difficulties * parents' SCO interaction term was significant ($B=.292$, $p=.009$) and accounted for a unique amount of variance in children's perceived stigma ($F(1, 196)=6.89$, $p=.009$, $R^2=.031$). *Post hoc* simple slope analyses (see Figure 2) revealed that higher levels of parents' perceived family life difficulties were associated with higher levels of children's perceived stigma when parents reported higher levels of SCO only ($B=.31$, $SE B=.09$, $t=3.38$, $p<.001$), not when parents had moderate ($B=.14$, $SE B=.08$, $t=1.83$, $p=.07$) or lower levels ($B=-.03$, $SE B=.11$, $t=-.30$, $p=.77$) of SCO.

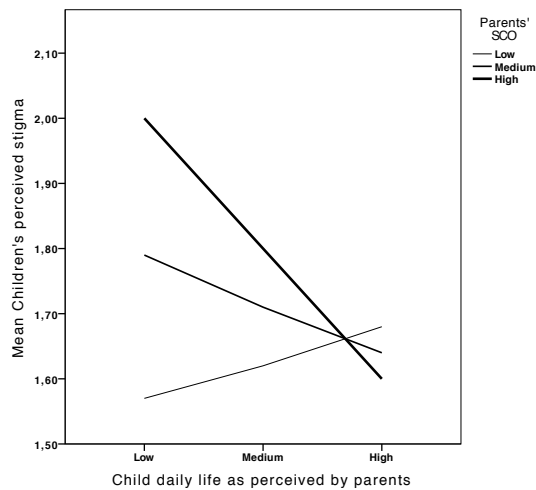


Figure 1. The moderating effect of parents' SCO on the links between parental perceptions of child daily life and children's perceived stigma

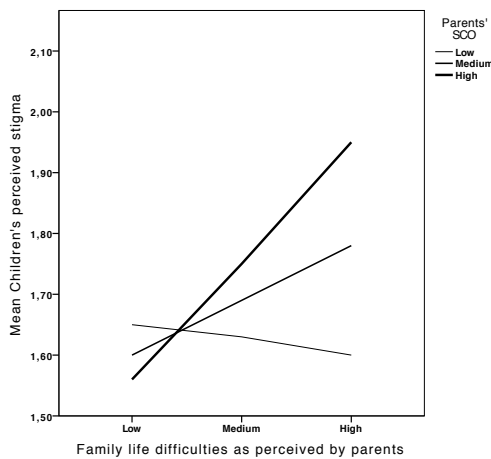


Figure 2. The moderating effect of parents' SCO on the links between parental perceptions of family life difficulties and children's perceived stigma

Children's HRQoL

When parental perceptions of child daily life were entered as the independent variable, in step 4, the main effects were found for both parental perceptions of child daily life and SCO. The child daily life*SCO interaction term ($B=.225$, $p=.029$) accounted for a unique amount of variance in HRQoL ($F(1,196)=4.83$, $p=.029$, $R^2=.021$). *Post hoc* simple slope analyses (see Figure 3) revealed that parental perceptions of child daily life were associated with higher levels of

children's HRQoL when parent's reported moderate ($B=.17$, $SE B=.07$, $t=2.47$, $p=.01$) and high levels of SCO ($B=.31$, $SE B=.09$, $t=3.32$, $p=.001$), but not when they had low levels of SCO ($B=.04$, $SE B=.09$, $t=.41$, $p=.68$).

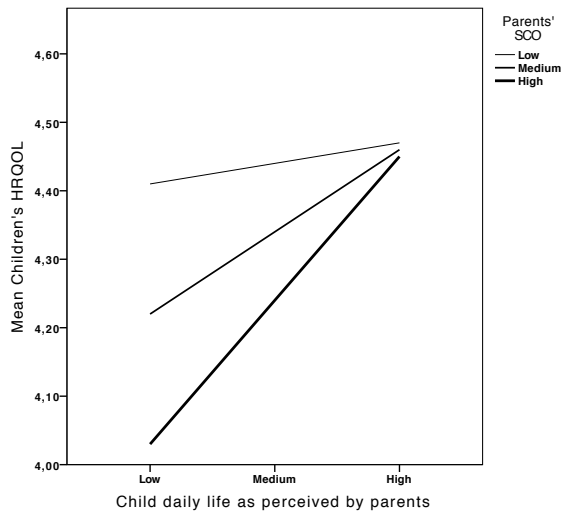


Figure 3. The moderating effect of parents' SCO on the links between parental perceptions of child daily life and children's HRQoL

When parental perceptions of family life difficulties were considered the independent variable, the final step of the regression showed a main effect of parents' SCO on children's HRQoL. The interaction between family life difficulties and parents' SCO was significant ($B=-.22$, $p=.046$) and accounted for a unique amount of variance in children's stigma ($F(1, 196)=4.01$, $p=.046$, $R^2=.02$). *Post hoc* simple slope analyses (see Figure 4) revealed that higher levels of family life difficulties were associated with lower levels of children's HRQoL when parent's had moderate ($B=-.24$, $SE B=.08$, $t=-3.18$, $p=.002$) and higher ($B=-.37$, $SE B=.09$, $t=-4.05$, $p<.001$) levels of SCO, but not when they had lower levels of SCO ($B=-.11$, $SE B=.11$, $t=-1.03$, $p=.30$).

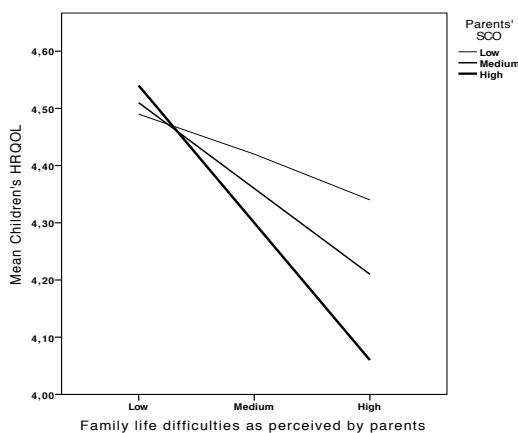


Figure 4. The moderating effect of parents' SCO on the links between parental perceptions of family life difficulties and children's HRQoL

Discussion

The present study hypothesized and found evidence for the moderating role of parents' social comparison orientation (SCO) on the associations between parents' perceptions of family management (family life difficulties and child daily life) and children's perceived stigma and HRQoL. When parents perceived higher difficulties managing their child's epilepsy and/or reported that their child was more affected by this condition, children reported higher perceived stigma and lower HRQoL, but only when parents were strongly prone to comparing themselves with others. These results were significant regardless of the severity of children's epilepsy. This is a novel finding in pediatric epilepsy that shows that parental characteristics such as engaging in social comparison may exacerbate the association between poor family management and worse outcomes in children with epilepsy, such as stigma and low HRQoL.

Children's perceived stigma

When parents perceived their child to be different (e.g., in terms of friendships and daily activities) due to their epileptic condition, higher levels of stigma were reported in children whose parents were more inclined to compare their situation (and their children's) with that of others. This result is supported by past research showing that among people with stigmatizing conditions (e.g., intellectual disabilities, HIV) and their respective caregivers, it is not having the condition per se that explains variability in psychosocial adjustment, but rather the way people perceive themselves in comparison with others (Dagnan & Waring, 2004; Finlay, Dinos, & Lyons, 2001). Social comparisons are considered central components of the personal experience of stigmatization (Dagnan & Waring, 2004; Finlay et al., 2001). Positive associations between parental perceived stigma and social comparison activity have previously been reported in a study with parents of children with a rare medical condition (Bolner, 2012). One possible explanation of our results is that for parents higher in SCO, distancing themselves from the potential negative effects of stigma may be more difficult because they are more sensitive to the possibility that their child feels different/stigmatized due to their condition. Parents are at the forefront of dealing with stigma, both within and outside the family system, and may 'coach' stigma in their child, consciously or unconsciously, through their perceptions, attitudes or behaviors (Thomas & Nair, 2011). Prior studies show that to protect their children with epilepsy, parents may limit disclosure of their child's diagnosis or even keep it a secret and limit their participation in social events (Austin et al., 2004; Painter et al., 2014); however, this strategy has

been linked to increased felt stigma in the child (Benson et al., 2016). Another possible explanation is that when considering the perceived impact of epilepsy on their child's life, parents may become overprotective (Rodenburg et al., 2013) and lower their expectations towards their child, which may ultimately contribute to an increased sense of "being/feeling different and vulnerable to social prejudice" among their children (Carlton-Ford, Miller, Nealeigh, & Sanchez, 1997).

Similarly, our study found that when parents reported difficulties in family life related with epilepsy management, their children were also affected and showed higher levels of perceived stigma. However, this association occurred only when parents were highly inclined to relate their own situation with that of others, not when they had low or moderate inclinations toward social comparison. A major challenge for parents is the lack of appropriate information and of emotional support regarding epilepsy (McNelis et al., 2007). It is important to note that most children in our sample had an epilepsy diagnosis for more than two years. While higher parental difficulties and concerns may be adaptive in the first year *post-diagnosis*, their persistence over time may indicate difficulties dealing with their child's epilepsy. Given the high rate of comorbidities (Austin et al., 2011; Oostrom et al., 2005), parents frequently express unmet intervention needs in the academic and/or mental health fields (K. Wu et al., 2008) for their children, or speak about difficulties relating with other systems (e.g., health, education, extended family) (K. Wu et al., 2008). Parents of children with epilepsy are therefore at increased risk of experiencing unfavorable upward social comparisons in various important dimensions and may feel that they (and their children) are, in many respects, worse off. Because targets or domains of social comparison were not assessed in the current study, future research should clarify these associations. Another possible explanation is that parents who feel more burdened by family management difficulties may be less capable of providing a supportive family environment, therefore limiting their child's opportunities to openly share and discuss their fears and uncertainties (e.g., possible reactions of others if a seizure occurs), which may lead to higher levels of children's perceived stigma.

Children's HRQoL

The detrimental impact of negative parental perceptions of children's life on children's HRQoL is a finding supported by past research (Carlton-Ford, Miller, Brown, Nealeigh, & Jennings, 1995; Cianchetti et al., 2015). Our study was innovative in further specifying the conditions under which this association is significant: only in families whose parents had moderate or high levels of SCO. Past research shows that comparison processes are more likely

to occur among those who negatively evaluate their own health or when objective information concerning one's health status is scarce (e.g., Bennenbroek et al., 2002; Brakel, Dijkstra, Buunk, & Siero, 2012). However, the higher dependency on social comparison information may have the negative consequence of worse adaptation outcomes. Individuals high in SCO are more likely to experience negative affectivity (Gibbons & Buunk, 1999; White et al., 2006), to feel less confident in their ability to manage their situation, and to respond more negatively to unfavorable comparison information (Arigo, Suls, & Smyth, 2012; Dibb & Yardley, 2006). It is possible that parents with moderate or high levels of SCO show high levels of concern and that this could negatively affect their child's HRQoL, specifically via reliance on overprotective parenting practices (Cianchetti et al., 2015; Rodenburg et al., 2013).

In a similar fashion, family life difficulties were negatively associated with children's HRQoL but only in families whose parents had moderate or high SCO. The negative association between parental difficulties related to epilepsy management and children's HRQoL is supported by past research (Jones & Reilly, 2016; Y. Wu et al., 2014). Parents of children with epilepsy frequently report concerns regarding inaccurate or incomplete information, and these concerns have the potential to interfere with appropriate management and adjustment to the condition in the parents themselves and consequently with their children's HRQoL (McNelis et al., 2007; Shore et al., 2009). According to our results, parental SCO exacerbates this negative association. People high in SCO are more uncertain and confused about their self-knowledge, as well as more prone to experiencing negative feelings when encountered with an unfavorable comparison (Bennenbroek et al., 2002). An important point regarding this finding is that negative interpretations of comparisons tend to be associated with avoidant rather than proactive coping behavior (Van der Zee, Buunk, Sanderman, Botke, & van den Bergh, 2000). Therefore, in the context of increased family difficulties, parents higher in SCO may be less likely to take the initiative to actively overcome these difficulties and may do so only to protect themselves and their children from possible negative appraisals; parents low in SCO may be more proactive in addressing stressful situations, which can benefit their child's HRQoL.

Limitations

This study has some limitations that should be acknowledged. First, our ability to make causal conclusions was limited by the cross-sectional nature of the study design. It is possible that when children report lower HRQoL and higher perceived stigma, this leads families to experience higher levels of family difficulties related to epilepsy management or to more negatively perceive child daily life. Second, due to the exploratory nature of the study, social

comparison processes were only examined at a general level – SCO. In the future, a more fine-tuned assessment of comparison processes, including consideration of the dimensions of social comparisons (e.g., severity of the condition, coping ability), choice of comparison targets (healthy children; children with the same condition; children with other health conditions), orientation of comparisons (downward, lateral or upward) and interpretation (identification with the target vs. contrast with the target), could be particularly useful for refining the detection of families/children at highest risk of poorer outcomes. Third, this study was limited to a Portuguese sample. The results may not be fully generalizable to other cultures, namely, those across Europe. European studies with adult patients with epilepsy have found important cross-country differences in the level of felt stigma, knowledge of epilepsy, and quality of medical care provided, with Portuguese patients reporting lower levels of felt stigma than those in Poland or France (Baker et al., 2000; Malmgren et al., 2003). Additionally, as the majority of our sample comprised children with well-controlled seizures and with a long post-diagnosis course - 4 years, on average - some caution is warranted when generalizing the results to the entire spectrum of epilepsy cases. In this study, we did not include parents of children with severe, nonverbal cognitive problems, which represent one third of families in the context of pediatric epilepsy. The findings should be replicated in broader clinical samples.

Conclusion and clinical implications

Despite the aforementioned limitations, the present study builds upon and extends the current literature. Following well-established international recommendations, we adopted a multi-informant methodology, using both parent's and children's self-reports in addition to neurologist's reports of epilepsy variables. Overall, our results support the hypothesis that parents' SCO acts as an aggravating factor of poorer children's HRQoL and higher perceived stigma in the context of perceived family adversity among parents – higher family life difficulties and worse child daily-life in particular. These results further emphasize the importance of adopting a family-centered model of care and provide innovative implications for clinical practice and research. Identifying targets in greatest need for limited intervention resources and guaranteeing more individualized care constitute major goals for pediatric epilepsy research. Our results call attention to the need of considering parents' SCO as an individual difference variable that may influence parent's attitudes and behaviors regarding their children's epilepsy and treatment, and that can potentially increase/hinder the efficacy of psychosocial intervention programs delivered to families.

In recent years, there has been a growing interest in psychoeducational family programs and patient/family support groups for childhood epilepsy (e.g., Shore, Perkins, & Austin, 2008). Healthcare professionals should be aware that besides offering families the opportunity to improve their levels of knowledge, self-management abilities or perceived social support through information delivery and the exchange of personal experiences and fears; participation in groups provide people with comparison information. Not every parent may benefit equally from these opportunities (Hodges & Dibb, 2010). For parents with higher SCO in particular, the opportunities for social comparison may be unhelpful, and parents may feel pessimistic if they believe that they/their child will never attain the level of someone who is perceived as better off; or anxious that they might one day be in the situation of someone who is worse off (Hodges & Dibb, 2010).

Given the inevitability of social comparison processes in health contexts, healthcare professionals face the challenge of incorporating comparative information into their interventions and into the development of informative materials (leaflets, sites, videos) to facilitate adaptive comparisons (Arigo et al., 2012; Tennen, McKee, & Affleck, 2000). Attention should be given to what kind of comparative information (e.g. coping-focused, emotion-focused) suits the family best, in terms of needs and preferences. Former studies with patients with other chronic conditions suggest that when providing patients with social comparison information, coping information seems to be the most beneficial for those high in SCO, while emotion information seems to be the most beneficial for those low in SCO (Buunk et al., 2012). Knowing which parents are most likely to respond to comparison information or the likely effects of such comparison exposure may be particularly useful.

Our results are innovative in the field of pediatric epilepsy in that they show that children of parents with higher SCO may have an increased risk of poorer outcomes and that these families may need assistance to more constructively use social comparison information (Bennenbroek et al., 2002; Hodges & Dibb, 2010). Social comparison processes, namely the effects of incorporating comparison information into psychosocial interventions, should be further investigated in future pediatric epilepsy research.

Compliance with ethical standards

Disclosure of potential conflicts of interest: None of the authors have potential conflicts of interest to declare.

Research involving human participants: We confirm that we have complied with all ethical standards of the institutional and/or national research committee and with the 1964 World Medical Association Declaration of Helsinki and its later amendments or comparable ethical standards for medical research involving human subjects.

Informed consent: Informed consent was obtained from all individual participants included in the study. More precisely, parents and children were informed that their participation was voluntary and would in no way affect the hospital care and/or the level of support services their child received. Written informed consent and assent were obtained from each participating parent and child, respectively.

Acknowledgments: The authors would like to express their gratitude to all the families who participated in this study as well as to the direction boards and personnel of the three hospital units involved: Centro Hospitalar Leiria-Pombal (Dr. Bilhota Xavier, Dra. Margarida Agostinho, Dr. Pascoal Moleiro); Hospital Garcia de Orta (Dr. Anselmo Costa; Dr. José Paulo Monteiro; Dra. Maria José Fonseca, Dra. Laura Lourenço, Dra. Lurdes Ventosa, Dra. Ana Filipa Lopes) and Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra - Pediátrico de Coimbra (Prof. Doutora Luísa Diogo, Dra. Conceição Robalo, Dra. Mónica Vasconcelos, Dra. Cristina Pereira, Dra. Isabel Fineza, Dra. Alexandra Pedruco, Dra. Cláudia Alfaiate, Nurse Fátima Martins, Nurse Andreia Matos, Nurse Mónica, Nurse Maria José).

References

- Arigo, D., Suls, J. M., & Smyth, J. M. (2012). Social comparisons and chronic illness: research synthesis and clinical implications. *Health Psychology Review*, 1-61. doi:10.1080/17437199.2011.634572
- Austin, J. K., Haber, L. C., Dunn, D. W., Shore, C. P., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2015). Children with new onset seizures: A prospective study of parent variables, child behavior problems, and seizure occurrence. *Epilepsy & behavior*, 53, 73-77. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.019
- Austin, J. K., MacLeod, J., Dunn, D. W., Shen, J., & Perkins, S. M. (2004). Measuring stigma in children with epilepsy and their parents: instrument development and testing. *Epilepsy & behavior*, 5(4), 472-482. doi:10.1016/j.yebeh.2004.04.008
- Austin, J. K., Perkins, S. M., & Dunn, D. W. (2014). A Model for Internalized Stigma in Children and Adolescents with Epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 36, 74-79. doi:10.1016/j.yebeh.2014.04.020
- Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2011). Behavior problems in children at time of first recognized seizure and changes over the following 3 years. *Epilepsy & behavior*, 21(4), 373-381. doi:10.1016/j.yebeh.2011.05.028
- Baker, G. A., Brooks, J., Buck, D., & Jacoby, A. (2000). The stigma of epilepsy: a European perspective. *Epilepsia*, 41(1), 98-104.
- Baulac, M., Boer, H., Elger, C., Glynn, M., Kalviainen, R., Little, A., . . . Ryvlin, P. (2015). Epilepsy priorities in Europe: A report of the ILAE- IBE Epilepsy Advocacy Europe Task Force. *Epilepsia (Series 4)*, 56(11), 1687-1695. doi:10.1111/epi.13201
- Bennenbroek, F. T., Buunk, B. P., van der Zee, K. I., & Grol, B. (2002). Social comparison and patient information: what do cancer patients want? *Patient Education & Counseling*, 47(1), 5-12.
- Benson, A., O'Toole, S., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2016). The stigma experiences and perceptions of families living with epilepsy: Implications for epilepsy-related communication within and external to the family unit. *Patient Education & Counseling*, 99(9), 1473-1481. doi:10.1016/j.pec.2016.06.009
- Berg, A. T., & Rychlik, K. (2015). The course of childhood-onset epilepsy over the first two decades: A prospective, longitudinal study. *Epilepsia (Series 4)*, 56(1), 40-48. doi:10.1111/epi.12862

- Blanchard, L. W., Blalock, S. J., DeVellis, R. F., DeVellis, B. M., & Johnson, M. R. (1999). Social Comparisons Among Mothers of Premature and Full-Term Infants. *ChildrArigo, D., Suls, J. M., & Smyth, J. M. (2012). Social comparisons and chronic illness: research synthesis and clinical implications. Health Psychology Review, 1-61. doi:10.1080/17437199.2011.634572*
- Austin, J. K., Haber, L. C., Dunn, D. W., Shore, C. P., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2015). Children with new onset seizures: A prospective study of parent variables, child behavior problems, and seizure occurrence. *Epilepsy & behavior, 53, 73-77. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.019*
- Austin, J. K., MacLeod, J., Dunn, D. W., Shen, J., & Perkins, S. M. (2004). Measuring stigma in children with epilepsy and their parents: instrument development and testing. *Epilepsy & behavior, 5(4), 472-482. doi:10.1016/j.yebeh.2004.04.008*
- Austin, J. K., Perkins, S. M., & Dunn, D. W. (2014). A Model for Internalized Stigma in Children and Adolescents with Epilepsy. *Epilepsy & behavior, 36, 74-79. doi:10.1016/j.yebeh.2014.04.020*
- Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2011). Behavior problems in children at time of first recognized seizure and changes over the following 3 years. *Epilepsy & behavior, 21(4), 373-381. doi:10.1016/j.yebeh.2011.05.028*
- Baker, G. A., Brooks, J., Buck, D., & Jacoby, A. (2000). The stigma of epilepsy: a European perspective. *Epilepsia, 41(1), 98-104.*
- Baulac, M., Boer, H., Elger, C., Glynn, M., Kalviainen, R., Little, A., . . . Ryvlin, P. (2015). Epilepsy priorities in Europe: A report of the ILAE- IBE Epilepsy Advocacy Europe Task Force. *Epilepsia (Series 4), 56(11), 1687-1695. doi:10.1111/epi.13201*
- Bennenbroek, F. T., Buunk, B. P., van der Zee, K. I., & Grol, B. (2002). Social comparison and patient information: what do cancer patients want? *Patient Education & Counseling, 47(1), 5-12.*
- Benson, A., O'Toole, S., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2016). The stigma experiences and perceptions of families living with epilepsy: Implications for epilepsy-related communication within and external to the family unit. *Patient Education & Counseling, 99(9), 1473-1481. doi:10.1016/j.pec.2016.06.009*
- Berg, A. T., & Rychlik, K. (2015). The course of childhood-onset epilepsy over the first two decades: A prospective, longitudinal study. *Epilepsia (Series 4), 56(1), 40-48. doi:10.1111/epi.12862*
- Blanchard, L. W., Blalock, S. J., DeVellis, R. F., DeVellis, B. M., & Johnson, M. R. (1999). Social Comparisons Among Mothers of Premature and Full-Term Infants. *Children's Health Care, 28(4), 329-348.*
- Bolner, O. (2012, March 29 – 31). *Effects of Perceived Stigma Amongst Parents of Children with Mitochondrial Disease*. Paper presented at the The National Conference On Undergraduate Research (NCUR), Ogden Utah
- Brakel, T. M., Dijkstra, A., Buunk, A. P., & Siero, F. W. (2012). Impact of social comparison on cancer survivors' quality of life: an experimental field study. *Health Psychology, 31(5), 660-670. doi:10.1037/a0026572*
- Buunk, A. P., Belmonte, J., Peiró, J. M., Zurriaga, R., & Gibbons, F. X. (2005). Diferencias individuadas en la comparacion social: Propiedades de la Escala Espanola de Orientation hacia la Comparacion Social. *Revista Latinoamericana de Psicologia, 37(3), 561-579.*

- Buunk, A. P., Bennenbroek, F. T., Stiegelis, H. E., van den Bergh, A. C., Sanderman, R., & Hagedoorn, M. (2012). Follow-up effects of social comparison information on the quality of life of cancer patients: the moderating role of social comparison orientation. *Psychology and Health, 27*(6), 641-654. doi:10.1080/08870446.2011.613994
- Carlton-Ford, S., Miller, R., Brown, M., Nealeigh, N., & Jennings, P. (1995). Epilepsy and children's social and psychological adjustment. *Journal of Health and Social Behavior, 36*(3), 285-301. doi:10.2307/2137344
- Carlton-Ford, S., Miller, R., Nealeigh, N., & Sanchez, N. (1997). The effects of perceived stigma and psychological over-control on the behavioural problems of children with epilepsy. *Seizure, 6*(5), 383-391.
- Cianchetti, C., Messina, P., Pupillo, E., Crichiutti, G., Baglietto, M. G., Veggiotti, P., . . . Beghi, E. (2015). The perceived burden of epilepsy: Impact on the quality of life of children and adolescents and their families. *Seizure, 24*, 2493-2101. doi:10.1016/j.seizure.2014.09.003
- Dagnan, D., & Waring, M. (2004). Linking stigma to psychological distress: testing a social-cognitive model of the experience of people with intellectual disabilities. *Clinical Psychology & Psychotherapy, 11*(4), 247-254. doi:10.1002/cpp.413
- Dibb, B., & Yardley, L. (2006). How does social comparison within a self-help group influence adjustment to chronic illness? A longitudinal study. *Social science & medicine, 63*(6), 1602-1613. doi:10.1016/j.socscimed.2006.03.031
- Fastenau, P. S., Shen, J., Dunn, D. W., Perkins, S. M., Hermann, B. P., & Austin, J. K. (2004). Neuropsychological predictors of academic underachievement in pediatric epilepsy: moderating roles of demographic, seizure, and psychosocial variables. *Epilepsia, 45*(10), 1261-1272. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.15204.x
- Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011). Prevalence and trajectories of depressive symptoms in mothers of children with newly diagnosed epilepsy. *Epilepsia, 52*(2), 326-336. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02899.x
- Ferro, M. A., Camfield, C. S., Levin, S. D., Smith, M. L., Wiebe, S., Zou, G. Y., & Speechley, K. N. (2013). Trajectories of health-related quality of life in children with epilepsy: A cohort study. *Epilepsia (Series 4), 54*(11), 1889-1897. doi:10.1111/epi.12388
- Finlay, W., Dinos, S., & Lyons, E. (2001). Stigma and multiple social comparisons in people with schizophrenia. *European Journal of Social Psychology, 31*(5), 579-592. doi:10.1002/ejsp.88
- Fisher, R. S., Cross, J. H., D'Souza, C., French, J. A., Haut, S. R., Higurashi, N., . . . Zuberi, S. M. (2017). Instruction manual for the ILAE 2017 operational classification of seizure types. *Epilepsia (Series 4), 58*(4), 531-542. doi:10.1111/epi.13671
- Fisher, R. S., Cross, J. H., French, J. A., Higurashi, N., Hirsch, E., Jansen, F. E., . . . Zuberi, S. M. (2017). Operational classification of seizure types by the International League Against Epilepsy: Position Paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia (Series 4), 58*(4), 522-530. doi:10.1111/epi.13670
- Gibbons, F. X., & Buunk, B. P. (1999). Individual differences in social comparison: development of a scale of social comparison orientation. *Journal of Personality & Social Psychology, 76*(1), 129-142.

- Hayes, A. (2013). *Introduction to Mediation, Moderation, and Conditional Process Analysis: A Regression-Based Approach*. NY: NY: Guilford Press.
- Hodges, L., & Dibb, B. (2010). Social comparison within self-help groups: Views of parents of children with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of Health Psychology, 15*(4), 483-492. doi:10.1177/1359105309355491
- Jacoby, A., & Austin, J. K. (2007). Social stigma for adults and children with epilepsy. *Epilepsia, 48 Suppl 9*, 6-9. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01391.x
- Jacoby, A., Snape, D. A., & Baker, G. A. (2005). Epilepsy and social identity: the stigma of a chronic neurological disorder. *Lancet Neurology, 4*(3), 171-178. doi:10.1016/S1474-4422(05)01014-8
- Jones, C., & Reilly, C. (2016). Parental anxiety in childhood epilepsy: A systematic review. *Epilepsia, 57*(4), 529-537. doi:10.1111/epi.13326
- Knafl, K. A., Deatrick, J. A., Gallo, A., Dixon, J., Grey, M., Knafl, G., & O'Malley, J. (2011). Assessment of the psychometric properties of the Family Management Measure. *Journal of pediatric psychology, 36*(5), 494-505. doi:10.1093/jpepsy/jsp034
- Knafl, K. A., Deatrick, J. A., Knafl, G. J., Gallo, A. M., Grey, M., & Dixon, J. K. (2013). Patterns of family management of childhood chronic conditions and their relationship to child and family functioning. *Journal of Pediatric Nursing, 523-535*. doi:10.1016/j.pedn.2013.03.006
- Lambert, V., Gallagher, P., O'Toole, S., & Benson, A. (2014). Stigmatizing feelings and disclosure apprehension among children with epilepsy. *Nursing Child Young People, 26*(6), 22-26. doi:10.7748/ncyp.26.6.22.e440.
- Lyubomirsky, S., Tucker, K., & Kasri, F. (2001). Responses to hedonically conflicting social comparisons: comparing happy and unhappy people. *European Journal of Social Psychology, 31*(5), 511-535. doi:10.1002/ejsp.82
- Malmgren, K., Flink, R., Guekht, A. B., Michelucci, R., Neville, B., Pedersen, B., . . . Ozkara, C. (2003). The Provision of Epilepsy Care across Europe. *Epilepsia (Series 4), 44*(5), 727-731. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.58402.x
- McNelis, A., Buelow, J., Myers, J., & Johnson, E. (2007). Concerns and needs of children with epilepsy and their parents. *Clinical Nurse Specialist, 21*(4), 195-202.
- Mendes, T., Crespo, C., & Austin, J. (2017). Family cohesion, stigma, and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents. *Journal of pediatric psychology, 1-11*. doi:10.1093/jpepsy/jsw105
- Modi, A. C. (2009). The impact of a new pediatric epilepsy diagnosis on parents: parenting stress and activity patterns. *Epilepsy & behavior, 14*(1), 237-242. doi:10.1016/j.yebeh.2008.10.009
- Oostrom, K. J., Schouten, A., Kruitwagen, C., Peters, A., & Jennekens-Schinkel, A. (2001). Parents' Perceptions of Adversity Introduced by Upheaval and Uncertainty at the Onset of Childhood Epilepsy. *Epilepsia (Series 4), 42*(11), 1452.
- Oostrom, K. J., van Teeseling, H., Smeets-Schouten, A., Peters, A. C., Jennekens-Schinkel, A., & Dutch Study of Epilepsy in, C. (2005). Three to four years after diagnosis: cognition and behaviour in children with 'epilepsy only'. A prospective, controlled study. *Brain, 128*(7), 1546-1555. doi:10.1093/brain/awh494

- Painter, E., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Changes in daily activity patterns of caregivers of children with newly diagnosed epilepsy: A case-controlled design. *Epilepsy & behavior*, *31*, 1-6. doi:10.1016/j.yebeh.2013.11.001
- Ramsey, R. R., Loisel, K. A., Rausch, J. R., Harrison, J., & Modi, A. C. (2016). Predictors of trajectories of epilepsy-specific quality of life among children newly diagnosed with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, *57*, 202-210. doi:10.1016/j.yebeh.2016.02.002
- Rodenburg, R., Meijer, A., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2006). Family predictors of psychopathology in children with epilepsy. *Epilepsia*, *47*(3), 601-614. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00475.x
- Rodenburg, R., Meijer, A. M., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2007). Parents of children with enduring epilepsy: predictors of parenting stress and parenting. *Epilepsy & behavior*, *11*(2), 197-207. doi:10.1016/j.yebeh.2007.05.001
- Rodenburg, R., Meijer, A. M., Scherphof, C., Carpay, J. A., Augustijn, P., Aldenkamp, A. P., & Dekovic, M. (2013). Parenting and restrictions in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, *27*(3), 497-503. doi:10.1016/j.yebeh.2013.01.026
- Ronen, G. M., Streiner, D. L., & Rosenbaum, P. (2003). Health-related quality of life in childhood epilepsy: moving beyond 'seizure control with minimal adverse effects'. *Health and quality of life outcomes*, *1*, 36.
- Ronen, G. M., Streiner, D. L., Verhey, L. H., Lach, L., Boyle, M. H., Cunningham, C. E., . . . North American Pediatric Epilepsy, Q. O. L. R. G. (2010). Disease characteristics and psychosocial factors: explaining the expression of quality of life in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, *18*(1-2), 88-93. doi:10.1016/j.yebeh.2010.02.023
- Rood, J. E., Schultz, J. R., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Examining perceived stigma of children with newly-diagnosed epilepsy and their caregivers over a two-year period. *Epilepsy & behavior*, *39*, 38-41. doi:10.1016/j.yebeh.2014.08.004
- Scheffer, I. E., Berkovic, S., Capovilla, G., Connolly, M. B., French, J., Guilhoto, L., . . . Zuberi, S. M. (2017). ILAE classification of the epilepsies: Position paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia (Series 4)*, *58*(4), 512-521. doi:10.1111/epi.13709
- Schmidt, S., & European Disabkids Group. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich, Germany: Pabst Science Publishers.
- Shore, C. P., Buelow, J. M., Austin, J. K., & Johnson, C. S. (2009). Continuing psychosocial care needs in children with new-onset epilepsy and their parents. *Journal of neuroscience nursing*, *41*(5), 244-250. doi:10.1097/JNN.0b013e3181b2c721
- Shore, C. P., Perkins, S. M., & Austin, J. K. (2008). The Seizures and Epilepsy Education (SEE) program for families of children with epilepsy: a preliminary study. *Epilepsy & behavior*, *12*(1), 157-164. doi:10.1016/j.yebeh.2007.10.001
- Simões, M. (1994). *Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population*. (Unpublished doctoral dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.
- Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & behavior*, *13*(2), 337-342. doi:10.1016/j.yebeh.2008.05.001

- Tennen, H., McKee, T. E., & Affleck, G. (2000). Social comparison processes in health and illness. In J. Suls & L. Wheeler (Eds.), *Handbook of social comparison: Theory and research*. (pp. 443-483). Dordrecht Netherlands: Kluwer Academic Publishers.
- Thomas, S., & Nair, A. (2011). Confronting the stigma of epilepsy. *Annals of Indian Academy of Neurology*, *14*(3), 158-163. doi:10.4103/0972-2327.85873
- Van der Zee, K., Buunk, B., Sanderman, R., Botke, G., & van den Bergh, F. (2000). Social comparison and coping with cancer treatment. *Personality and Individual Differences*, *28*(1), 17-34. doi:10.1016/S0191-8869(99)00045-8
- Westbrook, L. E., Bauman, F., & Shinnar, S. (1992). Applying stigma theory to epilepsy: a test of a conceptual model. *Journal of pediatric psychology*(0146-8693 (Print)).
- White, J., Langer, E., Yariv, L., & Welch, J. (2006). Frequent Social Comparisons and Destructive Emotions and Behaviors: The Dark Side of Social Comparisons. *Journal of Adult Development*, *13*(1), 36-44. doi:10.1007/s10804-006-9005-0
- Wu, K., Lieber, E., Siddarth, P., Smith, K., Sankar, R., & Caplan, R. (2008). Dealing with epilepsy: parents speak up. *Epilepsy & behavior*, *13*(1), 131-138. doi:10.1016/j.yebeh.2008.03.008
- Wu, Y., Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, *55*(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586
- en's *Health Care*, *28*(4), 329-348.
- Bolner, O. (2012, March 29 – 31). *Effects of Perceived Stigma Amongst Parents of Children with Mitochondrial Disease*. Paper presented at the The National Conference On Undergraduate Research (NCUR), Ogden Utah
- Brakel, T. M., Dijkstra, A., Buunk, A. P., & Siero, F. W. (2012). Impact of social comparison on cancer survivors' quality of life: an experimental field study. *Health Psychology*, *31*(5), 660-670. doi:10.1037/a0026572
- Buunk, A. P., Belmonte, J., Peiró, J. M., Zurriaga, R., & Gibbons, F. X. (2005). Diferencias individuales en la comparación social: Propiedades de la Escala Española de Orientación hacia la Comparación Social. *Revista Latinoamericana de Psicología*, *37*(3), 561-579.
- Buunk, A. P., Bennenbroek, F. T., Stiegelis, H. E., van den Bergh, A. C., Sanderman, R., & Hagedoorn, M. (2012). Follow-up effects of social comparison information on the quality of life of cancer patients: the moderating role of social comparison orientation. *Psychology and Health*, *27*(6), 641-654. doi:10.1080/08870446.2011.613994
- Carlton-Ford, S., Miller, R., Brown, M., Nealeigh, N., & Jennings, P. (1995). Epilepsy and children's social and psychological adjustment. *Journal of Health and Social Behavior*, *36*(3), 285-301. doi:10.2307/2137344
- Carlton-Ford, S., Miller, R., Nealeigh, N., & Sanchez, N. (1997). The effects of perceived stigma and psychological over-control on the behavioural problems of children with epilepsy. *Seizure*, *6*(5), 383-391.

Cianchetti, C., Messina, P., Pupillo, E., Crichiutti, G., Baglietto, M. G., Veggiotti, P., . . . Beghi, E. (2015). The perceived burden of epilepsy: Impact on the quality of life of children and adolescents and their families. *Seizure*, *24*, 2493-2101. doi:10.1016/j.seizure.2014.09.003

Dagnan, D., & Waring, M. (2004). Linking stigma to psychological distress: testing a social-cognitive model of the experience of people with intellectual disabilities. *Clinical Psychology & Psychotherapy*, *11*(4), 247-254. doi:10.1002/cpp.413

Dibb, B., & Yardley, L. (2006). How does social comparison within a self-help group influence adjustment to chronic illness? A longitudinal study. *Social science & medicine*, *63*(6), 1602-1613. doi:10.1016/j.socscimed.2006.03.031

Fastenau, P. S., Shen, J., Dunn, D. W., Perkins, S. M., Hermann, B. P., & Austin, J. K. (2004). Neuropsychological predictors of academic underachievement in pediatric epilepsy: moderating roles of demographic, seizure, and psychosocial variables. *Epilepsia*, *45*(10), 1261-1272. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.15204.x

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011). Prevalence and trajectories of depressive symptoms in mothers of children with newly diagnosed epilepsy. *Epilepsia*, *52*(2), 326-336. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02899.x

Ferro, M. A., Camfield, C. S., Levin, S. D., Smith, M. L., Wiebe, S., Zou, G. Y., & Speechley, K. N. (2013). Trajectories of health-related quality of life in children with epilepsy: A cohort study. *Epilepsia (Series 4)*, *54*(11), 1889-1897. doi:10.1111/epi.12388

Finlay, W., Dinos, S., & Lyons, E. (2001). Stigma and multiple social comparisons in people with schizophrenia. *European Journal of Social Psychology*, *31*(5), 579-592. doi:10.1002/ejsp.88

Fisher, R. S., Cross, J. H., D'Souza, C., French, J. A., Haut, S. R., Higurashi, N., . . . Zuberi, S. M. (2017). Instruction manual for the ILAE 2017 operational classification of seizure types. *Epilepsia (Series 4)*, *58*(4), 531-542. doi:10.1111/epi.13671

Fisher, R. S., Cross, J. H., French, J. A., Higurashi, N., Hirsch, E., Jansen, F. E., . . . Zuberi, S. M. (2017). Operational classification of seizure types by the International League Against Epilepsy: Position Paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia (Series 4)*, *58*(4), 522-530. doi:10.1111/epi.13670

Gibbons, F. X., & Buunk, B. P. (1999). Individual differences in social comparison: development of a scale of social comparison orientation. *Journal of Personality & Social Psychology*, *76*(1), 129-142.

Hayes, A. (2013). *Introduction to Mediation, Moderation, and Conditional Process Analysis: A Regression-Based Approach*. NY: NY: Guilford Press.

Hodges, L., & Dibb, B. (2010). Social comparison within self-help groups: Views of parents of children with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of Health Psychology*, *15*(4), 483-492. doi:10.1177/1359105309355491

Jacoby, A., & Austin, J. K. (2007). Social stigma for adults and children with epilepsy. *Epilepsia*, 48 Suppl 9, 6-9. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01391.x

Jacoby, A., Snape, D. A., & Baker, G. A. (2005). Epilepsy and social identity: the stigma of a chronic neurological disorder. *Lancet Neurology*, 4(3), 171-178. doi:10.1016/S1474-4422(05)01014-8

Jones, C., & Reilly, C. (2016). Parental anxiety in childhood epilepsy: A systematic review. *Epilepsia*, 57(4), 529-537. doi:10.1111/epi.13326

Knafl, K. A., Deatrck, J. A., Gallo, A., Dixon, J., Grey, M., Knafl, G., & O'Malley, J. (2011). Assessment of the psychometric properties of the Family Management Measure. *Journal of pediatric psychology*, 36(5), 494-505. doi:10.1093/jpepsy/jsp034

Knafl, K. A., Deatrck, J. A., Knafl, G. J., Gallo, A. M., Grey, M., & Dixon, J. K. (2013). Patterns of family management of childhood chronic conditions and their relationship to child and family functioning. *Journal of Pediatric Nursing*, 523-535. doi:10.1016/j.pedn.2013.03.006

Lambert, V., Gallagher, P., O'Toole, S., & Benson, A. (2014). Stigmatizing feelings and disclosure apprehension among children with epilepsy. *Nursing Child Young People*, 26(6), 22-26. doi:10.7748/ncyp.26.6.22.e440.

Lyubomirsky, S., Tucker, K., & Kasri, F. (2001). Responses to hedonically conflicting social comparisons: comparing happy and unhappy people. *European Journal of Social Psychology*, 31(5), 511-535. doi:10.1002/ejsp.82

Malmgren, K., Flink, R., Guekht, A. B., Michelucci, R., Neville, B., Pedersen, B., . . . Ozkara, C. (2003). The Provision of Epilepsy Care across Europe. *Epilepsia (Series 4)*, 44(5), 727-731. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.58402.x

McNelis, A., Buelow, J., Myers, J., & Johnson, E. (2007). Concerns and needs of children with epilepsy and their parents. *Clinical Nurse Specialist*, 21(4), 195-202.

Mendes, T., Crespo, C., & Austin, J. (2017). Family cohesion, stigma, and quality of life in dyads of children with epilepsy and their parents. *Journal of pediatric psychology*, 1-11. doi:10.1093/jpepsy/jsw105

Modi, A. C. (2009). The impact of a new pediatric epilepsy diagnosis on parents: parenting stress and activity patterns. *Epilepsy & behavior*, 14(1), 237-242. doi:10.1016/j.yebeh.2008.10.009

Oostrom, K. J., Schouten, A., Kruitwagen, C., Peters, A., & Jennekens-Schinkel, A. (2001). Parents' Perceptions of Adversity Introduced by Upheaval and Uncertainty at the Onset of Childhood Epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 42(11), 1452.

Oostrom, K. J., van Teeseling, H., Smeets-Schouten, A., Peters, A. C., Jennekens-Schinkel, A., & Dutch Study of Epilepsy in, C. (2005). Three to four years after diagnosis:

cognition and behaviour in children with 'epilepsy only'. A prospective, controlled study. *Brain*, 128(7), 1546-1555. doi:10.1093/brain/awh494

Painter, E., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Changes in daily activity patterns of caregivers of children with newly diagnosed epilepsy: A case-controlled design. *Epilepsy & behavior*, 31, 1-6. doi:10.1016/j.yebeh.2013.11.001

Ramsey, R. R., Loiselle, K. A., Rausch, J. R., Harrison, J., & Modi, A. C. (2016). Predictors of trajectories of epilepsy-specific quality of life among children newly diagnosed with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 57, 202-210. doi:10.1016/j.yebeh.2016.02.002

Rodenburg, R., Meijer, A., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2006). Family predictors of psychopathology in children with epilepsy. *Epilepsia*, 47(3), 601-614. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00475.x

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2007). Parents of children with enduring epilepsy: predictors of parenting stress and parenting. *Epilepsy & behavior*, 11(2), 197-207. doi:10.1016/j.yebeh.2007.05.001

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Scherphof, C., Carpay, J. A., Augustijn, P., Aldenkamp, A. P., & Dekovic, M. (2013). Parenting and restrictions in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 27(3), 497-503. doi:10.1016/j.yebeh.2013.01.026

Ronen, G. M., Streiner, D. L., & Rosenbaum, P. (2003). Health-related quality of life in childhood epilepsy: moving beyond 'seizure control with minimal adverse effects'. *Health and quality of life outcomes*, 1, 36.

Ronen, G. M., Streiner, D. L., Verhey, L. H., Lach, L., Boyle, M. H., Cunningham, C. E., . . . North American Pediatric Epilepsy, Q. O. L. R. G. (2010). Disease characteristics and psychosocial factors: explaining the expression of quality of life in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 18(1-2), 88-93. doi:10.1016/j.yebeh.2010.02.023

Rood, J. E., Schultz, J. R., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Examining perceived stigma of children with newly-diagnosed epilepsy and their caregivers over a two-year period. *Epilepsy & behavior*, 39, 38-41. doi:10.1016/j.yebeh.2014.08.004

Scheffer, I. E., Berkovic, S., Capovilla, G., Connolly, M. B., French, J., Guilhoto, L., . . . Zuberi, S. M. (2017). ILAE classification of the epilepsies: Position paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia (Series 4)*, 58(4), 512-521. doi:10.1111/epi.13709

Schmidt, S., & European Disabkids Group. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich, Germany: Pabst Science Publishers.

Shore, C. P., Buelow, J. M., Austin, J. K., & Johnson, C. S. (2009). Continuing psychosocial care needs in children with new-onset epilepsy and their parents. *Journal of neuroscience nursing*, 41(5), 244-250. doi:10.1097/JNN.0b013e3181b2c721

Shore, C. P., Perkins, S. M., & Austin, J. K. (2008). The Seizures and Epilepsy Education (SEE) program for families of children with epilepsy: a preliminary study. *Epilepsy & behavior*, *12*(1), 157-164. doi:10.1016/j.yebeh.2007.10.001

Simões, M. (1994). *Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population*. (Unpublished doctoral dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & behavior*, *13*(2), 337-342. doi:10.1016/j.yebeh.2008.05.001

Tennen, H., McKee, T. E., & Affleck, G. (2000). Social comparison processes in health and illness. In J. Suls & L. Wheeler (Eds.), *Handbook of social comparison: Theory and research*. (pp. 443-483). Dordrecht Netherlands: Kluwer Academic Publishers.

Thomas, S., & Nair, A. (2011). Confronting the stigma of epilepsy. *Annals of Indian Academy of Neurology*, *14*(3), 158-163. doi:10.4103/0972-2327.85873

Van der Zee, K., Buunk, B., Sanderman, R., Botke, G., & van den Bergh, F. (2000). Social comparison and coping with cancer treatment. *Personality and Individual Differences*, *28*(1), 17-34. doi:10.1016/S0191-8869(99)00045-8

Westbrook, L. E., Bauman, F., & Shinnar, S. (1992). Applying stigma theory to epilepsy: a test of a conceptual model. *Journal of pediatric psychology*(0146-8693 (Print)).

White, J., Langer, E., Yariv, L., & Welch, J. (2006). Frequent Social Comparisons and Destructive Emotions and Behaviors: The Dark Side of Social Comparisons. *Journal of Adult Development*, *13*(1), 36-44. doi:10.1007/s10804-006-9005-0

Wu, K., Lieber, E., Siddarth, P., Smith, K., Sankar, R., & Caplan, R. (2008). Dealing with epilepsy: parents speak up. *Epilepsy & behavior*, *13*(1), 131-138. doi:10.1016/j.yebeh.2008.03.008

Wu, Y., Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, *55*(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586

CAPÍTULO IV

DISCUSSÃO INTEGRADA DOS RESULTADOS

I Síntese e discussão integrada dos principais resultados

Adaptar-se aos desafios associados à epilepsia pediátrica na família faz parte da experiência passada, presente e futura de muitas famílias portuguesas. No contexto nacional, porém, a investigação em torno da experiência psicológica da adaptação nestas famílias é praticamente inexistente. Partindo de uma revisão de literatura internacional sobre o tema, da discussão com especialistas nacionais e internacionais na área da epilepsia pediátrica, e tendo por base o modelo socioecológico da adaptação e mudança aplicado às condições crónicas de saúde pediátricas (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), desenvolveram-se seis estudos com o grande objetivo de contribuir para o aprofundamento da compreensão da adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, bem como dos fatores e mecanismos explicativos dessa adaptação, com destaque para os fatores familiares. O presente capítulo final visa oferecer uma visão integrada da investigação que procurou dar resposta a lacunas específicas identificadas na literatura, sintetizando os resultados principais, discutindo os seus pontos fortes e limitações e, por fim, destacando algumas implicações que dela advêm, incidindo principalmente na investigação e na prática clínica.

Apresenta-se, de seguida, uma síntese e discussão integrada dos principais resultados dos estudos desenvolvidos, tendo como ponto de partida os objetivos gerais a que nos propusemos dar resposta no âmbito do presente projeto (cf. Capítulo II). Os quatro tópicos seguintes correspondem aos objetivos formulados, sendo que o ponto 4.4. congrega os contributos do nosso estudo relativamente aos objetivos 4 e 5.

I.1 Estado da arte: Adaptação de crianças com epilepsia e seus pais com base no modelo socioecológico de adaptação e mudança

No sentido de responder à lacuna referente à escassez de referenciais teóricos consistentes a organizar a investigação na área da epilepsia pediátrica, o Estudo I procurou constituir um ensaio de organização da diversidade da investigação sobre a adaptação individual e familiar na epilepsia pediátrica por aplicação do modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009). Deste modo, traçou-se um percurso que procurou situar e examinar o amplo corpo de investigação em torno da adaptação no contexto da epilepsia pediátrica, nos diferentes níveis ecológicos, sucessivamente mais abrangentes, enquanto contextos onde a investigação de cariz psicossocial na epilepsia pediátrica se tem desenrolado, colocando o foco em estudos com dados relevantes para crianças e/ou pais. A nível micro-sistémico abordaram-se a doença, os indivíduos (crianças com epilepsia, pais cuidadores), as relações-diádicas (relações pais-filhos), e ainda a família como um todo. Em níveis sistémicos posteriores foi explorada a relação da família com os sistemas exteriores mais significativos -

sistema de saúde e escolar (nível mesossistêmico), o papel das redes de apoio comunitário (nível exossistêmico) e por último das crenças culturais e sociais em torno da epilepsia (nível macrossistêmico). Da revisão efetuada ressaltam as seguintes considerações:

Nos últimos anos registaram-se grandes mudanças ao nível dos conteúdos e metodologias de investigação no contexto da adaptação na epilepsia pediátrica. A preocupação inicial em evidenciar o impacto negativo da presença da condição clínica epilética, numa lógica meramente descritiva, e fundada em indicadores relacionados com a presença/ausência de sintomas psicopatológicos, tem progressivamente dado lugar a um enfoque mais compreensivo da variabilidade dos resultados da adaptação, à utilização de indicadores de adaptação multidimensionais, positivos, fundados no conceito de QdV, bem como à identificação de fatores de cariz positivo preditores da adaptação.

Pôde concluir-se que a maior parte da investigação na área da epilepsia pediátrica em torno do impacto e adaptação individual e familiar tem-se situado nas crianças e, sobretudo, a partir de dados fornecidos pelos hetero-relatos dos pais. A adaptação dos pais, e dos restantes membros e subsistemas da família (e.g., fraternal, conjugal), da família como um todo, e das respetivas relações com sistemas mais abrangentes, tem merecido menos atenção. A nível exossistêmico registam-se lacunas, particularmente ao nível da compreensão da (pouca) propensão dos pais para fazerem uso de redes de apoio comunitário, e de partilharem dúvidas com outros pais, em contextos de ajuda mútua.

Se por um lado as evidências empíricas em torno da adaptação individual de crianças com epilepsia e seus pais são relativamente consistentes ao apresentarem a epilepsia como fator de risco acrescido para a ocorrência de problemas de comportamento, aprendizagem, desajustamento psicológico, níveis inferiores de qualidade de vida; por outro lado sabe-se, nomeadamente, pelo propriedade sistémica da equifinalidade que risco não significa, automaticamente, um resultado final de desadaptação. Assim, e apesar da adversidade e dos desafios adicionais relacionados com a presença da epilepsia nas suas vidas, dados da investigação são relativamente consistentes ao concluir que a maioria das crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica apresenta níveis satisfatórios de adaptação. Importa esclarecer porque é que certas crianças e respetivos pais conseguem evidenciar níveis adequados de adaptação, ao passo que outras crianças e pais revelam muitas dificuldades a este nível, designadamente esclarecer os fatores associados com essa variabilidade no nível de adaptação conseguido, e respetivos mecanismos de atuação.

Quando se comparam famílias com filhos com epilepsia com famílias com filhos com outras CCSP, ao nível da qualidade do funcionamento familiar como um todo, os resultados de investigação são heterogéneos. Enquanto uns estudos sugerem níveis consistentemente

inferiores de funcionamento familiar adaptativo nas famílias com epilepsia (Chiou & Hsieh, 2008), outros concluem acerca da não existência de diferenças significativas (Herzer et al., 2010).

Algumas inconsistências registadas ao nível das evidências empíricas em torno da adaptação de crianças e pais no contexto na epilepsia pediátrica não podem ser desligadas de fatores como a variabilidade das medidas utilizadas para medir os mesmos construtos; o recurso a medidas genéricas vs. medidas específicas; o tipo de informantes utilizados (auto ou hetero-relato); lacunas ao nível da conceptualização e avaliação das variáveis; vazios teóricos aquando da elaboração das questões e hipóteses de investigação e na discussão dos resultados.

Apesar do reconhecimento da importância da família na adaptação e desenvolvimento das crianças em geral, e no contexto de uma condição crónica de saúde em particular, bem como do interesse registado nos últimos anos em torno das variáveis e processos de adaptação familiar, e da resiliência das famílias, verificou-se uma escassez de estudos a analisar o papel dos fatores familiares globais, e respetivos mecanismos de influência, nos resultados de adaptação individual das crianças com epilepsia, e respetivos pais (Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009; Rolland & Walsh, 2006).

Em suma, a presente revisão ilustrou a utilidade do modelo socioecológico de adaptação e mudança na identificação de fatores passíveis de promover ou de comprometer os níveis de adaptação individuais e familiares, bem como na compreensão de formas complexas de interação entre os vários sistemas relevantes na vida das crianças com epilepsia e seus pais.

1.2 A orientação para a comparação social no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas: Adaptação do Iowa-Netherlands Social Comparison Measure (INCOM)

A comparação social constitui um construto amplamente examinado na literatura internacional, designadamente pela sua relevância na compreensão da variabilidade dos resultados de adaptação em contextos de saúde e doença (Arigo et al., 2012; Tennen, McKee, & Affleck, 2000). A generalidade da investigação a este nível tem sido realizada com doentes adultos. Em contextos de condições crónicas pediátricas, a análise dos processos de comparação social permanece largamente inexplorada. Procurando responder a lacunas identificadas ao nível da avaliação de fatores individuais específicos, no âmbito do Estudo II foram desenvolvidos os estudos de adaptação transcultural do *Iowa-Netherlands Social Comparison Measure* (INCOM, Gibbons & Buunk, 1999), uma medida de orientação para a comparação social, com pais de crianças com condições crónicas de saúde pediátricas. Dos resultados dos estudos de adaptação da versão portuguesa da INCOM em pais de crianças com CCSP, destacam-se os seguintes aspetos:

-Relativamente à validade fatorial, a solução que ofereceu maior robustez em termos de indicadores psicométricos com base na análise factorial confirmatória, foi a solução unidimensional da INCOM, com a exclusão dos dois itens formulados na negativa. A nova versão da escala, composta por nove itens foi testada numa segunda amostra independente, e os resultados demonstraram a respetiva estabilidade da solução unidimensional;

-Em termos de fiabilidade, os resultados atestam que a INCOM constitui uma medida fiável para avaliar a orientação para a comparação social da população de pais de crianças com CCSP;

-Relativamente à validade convergente, foram encontradas associações positivas significativas de magnitude baixa a moderada com medidas de sintomas psicopatológicos (ansiedade e depressão) e neuroticismo.

Apesar dos estudos originais de validação da INCOM apoiarem uma estrutura fatorial do construto *Orientação para a Comparação Social* como composto por duas dimensões latentes – “capacidades”, “opiniões” - os autores da escala assumem que a versão unidimensional também poderia ser adequada (Gibbons & Buunk, 1999). Esclarecer a estrutura dimensional da escala ajuda a perceber as relações significativas com outras variáveis clínicas e psicossociais, designadamente na área das CCSP (Gibbons & Buunk, 1999, p. 137). Com o intuito de examinar a validade fatorial da INCOM, este foi o primeiro estudo a comparar dois modelos dimensionais alternativos: bidimensional e unidimensional, por recurso a análise factorial confirmatória (AFC). Contrariamente a outros estudos onde a estrutura bidimensional emergiu como a mais válida e consistente (e.g., Gibbons & Buunk, 1999; Schneider & Schupp, 2014), os resultados da AFC do modelo bifatorial da versão portuguesa da INCOM sugeriram uma elevada sobreposição dos fatores “capacidades” e “opiniões”, comprometendo a validade discriminante da medida, e por inerência a respetiva plausibilidade dessa solução. De acordo com os nossos resultados, a solução fatorial que ofereceu maior robustez em termos de indicadores psicométricos foi a solução unidimensional, com a exclusão dos dois itens formulados na negativa. Os problemas de ajustamento do modelo bifatorial, e com os dois itens de formulação negativa, já haviam sido referidos noutros estudos de adaptação do instrumento, nomeadamente nos conduzidos em Espanha e na Alemanha (Buunk et al., 2005; Schneider & Schupp, 2014). A solução fatorial encontrada foi testada numa segunda amostra independente, e os resultados demonstraram a respetiva estabilidade da solução unidimensional composta por nove itens.

Em termos de fiabilidade, os resultados do nosso estudo atestam que a INCOM constitui uma medida fiável para avaliar a orientação para a comparação social da população de pais de crianças com CCSP, à semelhança do observado nos estudos que utilizaram uma versão de nove itens semelhante à nossa (Buunk et al., 2012).

Relativamente à validade convergente da versão portuguesa da INCOM, os nossos resultados vão de encontro ao registado nos estudos da versão original para as línguas inglesa e holandesa (Gibbons & Buunk, 1999), bem como para os estudos da versão espanhola (Buunk et al., 2005). Estudos posteriores têm demonstrado que pessoas com maior orientação para a comparação social tendem a ser mais infelizes, a reagir de uma forma mais intensa à informação comparativa (White et al., 2006), a deterem visões mais negativas de si próprios (Vogel, Rose, Okdie, Eckles, & Franz, 2015) e a revelarem maior suscetibilidade à deterioração da respetiva QdV em contexto de doenças crónicas progressivas (Dibb & Yardley, 2006).

Ao contribuir para a disponibilização da INCOM no contexto sociocultural português, o Estudo II permitiu ainda colmatar a escassez de estudos ao nível da literatura internacional que reportam as propriedades psicométricas da INCOM, clarificar inconsistências identificadas ao nível da dimensionalidade da medida, bem como atestar a respetiva aplicabilidade e relevância no contexto das CCSP.

1.3 Epilepsia e outras condições crónicas de saúde pediátricas: Dados comparativos de funcionamento familiar e adaptação de pais e filhos

Procurando responder à escassez de estudos comparativos na literatura da epilepsia pediátrica, os Estudos II e III visaram melhorar a compreensão atual da situação relativa de adaptação das famílias com crianças com epilepsia, relativamente a famílias com outras CCSP (asma, diabetes e obesidade); determinar comunalidades e diferenças entre grupos com CCSP distintas, em diferentes níveis de variáveis; clarificar até que ponto se justifica o estatuto de risco psicossocial acrescido para piores resultados de adaptação individual e familiar associado à epilepsia pediátrica (Rodrigues & Patterson, 2007; Wade et al., 2006; Wallander & Varni, 1998), em comparação com outras condições crónicas de saúde pediátricas sem envolvimento do sistema nervoso central. De entre os resultados encontrados, consideramos relevante destacar os seguintes:

-Ao nível das variáveis do funcionamento familiar global geral, verificou-se que os pais de crianças com obesidade reportavam níveis inferiores de coesão familiar comparativamente a pais de crianças com asma. No que respeita à gestão familiar no contexto das CCSP, foram encontradas diferenças ao nível das dificuldades na vida familiar. Pais de crianças com diabetes, obesidade e epilepsia reportaram níveis superiores de dificuldades familiares relacionadas com a gestão da CCSP, comparativamente aos pais de crianças com asma. Ao nível da mutualidade parental, não foram encontradas diferenças entre os quatro grupos clínicos (Estudo III);

-Nas variáveis individuais (orientação para a comparação social dos pais) não foram encontradas diferenças a este nível entre pais de crianças com CCSP distintas (asma, diabetes, epilepsia e obesidade) (Estudo II);

-Nos indicadores de adaptação de pais (sintomas ansiosos e depressivos) não foram encontradas diferenças (Estudo III)

-Foram encontradas diferenças ao nível da QdVRS das crianças: os pais de crianças com diabetes e obesidade reportaram níveis inferiores de QdVRS para os seus filhos, relativamente aos pais de crianças com epilepsia e asma (Estudo III).

Na literatura sobre as condições crónicas de saúde pediátrica são comuns as referências ao risco acrescido para desajustamento psicossocial em crianças com condições de saúde com envolvimento do sistema nervoso central em particular, como é o caso da epilepsia, bem como dos respetivos pais (Drotar, 1997; Wallander & Varni, 1998). Pelos resultados obtidos não podemos concluir da posição de maior fragilidade ocupada pelas crianças com epilepsia e respetivos pais, relativamente às famílias com crianças com as três outras condições crónicas de saúde consideradas, tanto ao nível das variáveis do funcionamento familiar, como das variáveis individuais de pais e indicadores de adaptação individual de pais e de crianças. Especificamente ao nível da QdVRS das crianças, registaram-se diferenças entre condições de crónicas de saúde, mas o grupo das crianças com epilepsia não foi o que registou resultados mais baixos. Este resultado encontra apoio em alguns estudos (e.g., Varni et al., 2007), mas contrasta com outros (e.g., Hoare et al., 2000). Ao nível das variáveis familiares foram reportadas maiores dificuldades familiares na gestão diária da epilepsia relativamente à asma, mas não relativamente à diabetes e à obesidade.

Também de acordo com os nossos resultados, a grande maioria das crianças e pais, independentemente do grupo clínico, evidenciaram valores de adaptação globalmente positivos. Assim, registaram-se valores de grupo acima do ponto médio ao nível da QdVRS das crianças (exceto no caso do grupo diabetes) e abaixo do ponto de corte para sintomas psicopatológicos clinicamente significativos, no caso dos pais. Este conjunto de resultados corroboram a ideia amplamente difundida na literatura de que apesar dos desafios adicionais impostos pela CCSP, a maior parte destas famílias apresenta valores de adaptação positivos (Kazak et al., 2009; Rolland & Walsh, 2006), demonstrativos da capacidade de resiliência das famílias, enquanto sistemas abertos, auto-organizados, capazes de integrar acontecimentos de vidas desafiantes.

Adicionalmente, e em face das diferenças entre condições crónicas de saúde pediátricas incluídas nos Estudos II e III, designadamente em termos de visibilidade dos sintomas, estigma associado, complexidade do tratamento, grau em que as manifestações sintomáticas estão sob controlo do doente (Rolland, 1987), o facto de se terem encontrado diferenças ao nível de certos indicadores de adaptação individual (das crianças e não dos pais), bem como de certas variáveis do funcionamento familiar global no contexto geral (coesão familiar), como no contexto da gestão familiar das CCSP (dificuldades na vida familiar), mas não em outras (mutualidade parental, orientação para a comparação social) reforça a necessidade de se adotar,

na investigação, uma perspectiva categorial modificada do impacto das CCSP (Thompson & Gustafson, 1996). De acordo com esta perspectiva, apesar das transversalidades na experiência do confronto com os desafios apresentados por condições crónicas de saúde distintas, são de esperar algumas especificidades, decorrentes das particularidades impostas por cada doença. Estes resultados sugerem a importância de combinar medidas genéricas com medidas específicas do funcionamento familiar no contexto das CCSP, mais sensíveis às especificidades da experiência da adaptação à condição de saúde, e sua variação ao longo do tempo.

1.4 Importância dos recursos familiares para a adaptação de crianças e pais

No sentido de compreender a variabilidade dos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, a investigação no contexto geral das CCSP tem enfatizando a necessidade de se identificarem fatores modificáveis, em diferentes níveis sistémicos, associados a resultados da adaptação individual das crianças e adolescentes com epilepsia e dos seus pais.

Procurando colmatar lacunas ao nível da conceptualização e avaliação das variáveis familiares, e recuperando a distinção de Alderfer e colegas (2008) relativamente à conceptualização dos diferentes tipos de variáveis familiares na investigação em Psicologia Pediátrica, no presente projeto de investigação foi analisada a influência de fatores familiares, muito concretamente de fatores familiares globais no contexto geral - coesão familiar (Estudos III, IV) e significado dos rituais familiares (Estudo V); e de fatores familiares globais no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas - mutualidade parental, vida diária da criança, dificuldades na vida familiar (Estudos III, IV e VI), que se hipotetizou constituírem recursos importantes para a adaptação individual dos membros da família no contexto da epilepsia.

Em simultâneo, e antecipando que muita da influência das variáveis familiares seria exercida de forma indireta ou moderada por outras variáveis, no sentido de superar lacunas identificadas na literatura ao nível do tipo de questões de investigação a privilegiar (enfoque compreensivo em detrimento de um enfoque meramente descritivo), foram examinados mecanismos específicos de atuação dos fatores familiares globais, ao nível dos resultados de adaptação de crianças e de pais, concretizados na realização de quatro estudos empíricos (Estudos III, IV, V e VI).

Especificamente, o **Estudo III** examinou os efeitos diretos e indiretos de um fator familiar global no contexto geral (coesão familiar), nos indicadores de adaptação de pais e crianças, por via das associações com duas dimensões do funcionamento familiar global no contexto das CCSP, em famílias confrontadas com o diagnóstico há pelo menos nove meses. O Estudo IV testou um outro mecanismo de influência da coesão familiar na QdV de pais e filhos, por via das associações negativas com o estigma. O Estudo V, focado nos pais, centrou-

se na análise dos efeitos diretos e indiretos do significado dos rituais familiares na adaptação de pais, por via das associações com duas dimensões da competência parental. O Estudo VI analisou o papel moderador da orientação para a comparação social dos pais, nas associações entre dimensões do funcionamento familiar global no contexto da epilepsia pediátrica e dois indicadores de adaptação das crianças (percepção de estigma e QdVRS).

Ao nível do Estudo III, destacam-se os seguintes resultados:

-A coesão familiar revelou associações diretas e indiretas ao nível de sintomatologia depressiva dos pais, por via de ambos os mediadores (dificuldades na vida familiar e mutualidade parental); as associações entre a coesão e os níveis de sintomatologia ansiosa dos pais e da QdVRS das crianças foram apenas indiretas, por via das percepções de dificuldades na vida familiar no âmbito da gestão familiar da condição de saúde.

-A coesão familiar influenciou o nível de sintomatologia depressiva dos pais tanto por via das associações negativas às dificuldades na vida familiar, como por via das associações positivas à mutualidade parental. Não se registam diferenças na magnitude dos efeitos indiretos identificados (dificuldades na vida familiar vs. mutualidade parental).

-As associações diretas e indiretas testadas entre variáveis do funcionamento familiar global (no contexto geral e no contexto das CCSP) e indicadores de adaptação de pais e de filhos, foram igualmente válidas para os quatro grupos clínicos.

Os resultados do Estudo III confirmam a relevância das variáveis do funcionamento familiar global, tanto no contexto geral (coesão familiar), como no contexto de uma CCSP (mutualidade parental e dificuldades na vida familiar), para a compreensão dos resultados de adaptação, atendendo à elevada variabilidade explicada da QdVRS de crianças e dos sintomas ansiosos e depressivos dos pais (20 e 27%, respetivamente). Estudos anteriores têm destacado a relevância dos recursos familiares e das experiências e práticas familiares de gestão bem-sucedida das CCSP na compreensão dos processos de adaptação de crianças com CCSP e seus pais (Crespo et al., 2013; Fiese, Spagnola, et al., 2008; Knafl et al., 2013; Weissberg-Benchell et al., 2009), designadamente através do estabelecimento de rotinas regulares relacionadas com o tratamento médico, do reconhecimento atempado e monitorização dos sintomas, da implementação de estratégias familiares para controlar os precipitantes de crises sintomáticas, do proporcionar condições de apoio emocional para fazer face às contrariedades impostas pela CCSP (Alderfer & Rourke, 2010; Fiese, Spagnola, et al., 2008; La Greca & Bearman, 2003).

O Estudo III estende os resultados da literatura atual, ao clarificar mecanismos específicos de influência de variáveis do funcionamento familiar global no contexto geral, nos resultados de adaptação de crianças com CCSP e seus pais, aplicável a diferentes condições CCSP (asma, epilepsia, diabetes e obesidade), por via de variáveis do funcionamento familiar

global no contexto das CCSP. De acordo com os resultados, quando os pais reportavam mais coesão, também reportavam menores dificuldade na vida familiar relacionadas com a gestão da condição de saúde, o que estava associado a melhor adaptação de pais e de crianças, simultaneamente considerados. Este resultado reforça a noção já referida na literatura de que, em situações de saúde adversas, a capacidade da família para colocar a doença de um dos seus elementos individuais “no lugar”, constitui um determinante importante dos indicadores de adaptação individual (Holmbeck et al., 2002; Steinglass & Horan, 1988). Relativamente à mutualidade parental, esta dimensão do funcionamento familiar pareceu ter um impacto relevante, sobretudo ao nível da sintomatologia depressiva dos pais. Este resultado encontra apoio em estudos anteriores. Famílias onde se regista um maior envolvimento dos pais, e onde ambos os parceiros estejam capazes de se apoiar mutuamente, tanto do ponto de vista prático, como emocional, em prol de uma efetiva gestão familiar da CCSP, evidenciam níveis superiores de funcionamento familiar e conjugal (Gavin & Wysocki, 2006; Laxman et al., 2015). A relação conjugal constitui um sistema de primeira linha de suporte emocional dos pais, especialmente das mães, com implicações ao nível dos comportamentos parentais (Belsky & Jaffee, 2006) e do bem-estar psicológico dos indivíduos (Carr, Freedman, Cornman, & Schwarz, 2014; Laxman et al., 2015). Atendendo a que as mães tendem a protagonizar a prestação de cuidados de saúde aos filhos (Raina et al., 2004), um maior envolvimento do parceiro pode prevenir sobrecarga no papel de prestação de cuidados, e em simultâneo contribuir para melhorar a comunicação e reforçar os laços entre cônjuges (Gavin & Wysocki, 2006).

Os resultados deste estudo permitiram mapear o modo como as famílias funcionam no contexto das CCSP e clarificar o impacto relativo destes tipos distintos de variáveis familiares nos indicadores de adaptação de pais e de filhos. Os resultados atestam igualmente a relevância de combinar variáveis do funcionamento familiar no contexto geral e no contexto não-normativo das CCSP, pelo valor acrescido em termos de potencial de explicação da variabilidade dos indicadores de adaptação. O facto do modelo de mediação hipotetizado se ter revelado igualmente válido para os quatro grupos clínicos reforça o reconhecimento da existência de mecanismos de adaptação comuns entre condições crónicas de saúde distintas, passíveis de fornecer pistas importantes para a estruturação de intervenções psicossociais a realizar com estas populações. A presente investigação reafirma a importância da investigação na área da epilepsia pediátrica estar alicerçada em referenciais teóricos consistentes, como é o caso do modelo sistémico e socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), uma vez que tal facilita a seleção e organização de variáveis, e especificação de modelos de associação entre variáveis específicas, aspeto que facilita a consolidação de um corpo de investigação mais integrado, abrindo caminho para a realização de comparações e de implicações entre estudos com condições crónicas de saúde distintas.

O **Estudo IV** visou colmatar várias limitações observadas na literatura, tanto a nível metodológico, como conceptual, ao analisar papel da coesão familiar na QdV de crianças com epilepsia e seus pais (individual e diadicamente), ambos avaliados por recurso a auto-relatos de pais e de filhos, bem como elucidar sobre eventuais mecanismos explicativos desta associação através das percepções de estigma social. Destacam-se os seguintes resultados:

-Quando crianças e pais reportavam níveis superiores de coesão familiar também reportavam níveis inferiores de estigma e melhor QdV;

-A hipótese de mediação recebeu apoio parcial: a coesão familiar estava associada positivamente à QdV diretamente para crianças e pais, e indiretamente para as crianças (e não para pais), por via das associações negativas com as percepções de estigma.

-A nível diádico, registaram-se apenas efeitos diretos, ou seja, quando os pais reportavam níveis superiores de coesão familiar, as crianças apresentavam melhor QdV;

-As associações testadas foram válidas independentemente da gravidade clínica da epilepsia dos filhos, do seu grupo etário e do nível socioeconómico da família.

A redução da percepção de estigma foi identificada como um mecanismo específico através do qual a coesão familiar pode conduzir a melhor QdV nas crianças. O estigma persiste como uma peça fundamental no fardo invisível da epilepsia (Baulac et al., 2015; Lambert et al., 2014). A forma como o sistema familiar no seu todo, integra, convive e lida com o estigma em relação à epilepsia, exige maior clarificação (A. Benson et al., 2016; O'Toole et al., 2015). Reconhecendo o importante facto de pais e filhos enfrentarem e partilharem as experiências e desafios impostos pela doença de modo conjunto, e de se influenciarem mutuamente - aspeto reconhecido amplamente do ponto de vista teórico, mas raramente abordado do ponto de vista empírico-, este estudo visou ultrapassar tal lacuna. Usando uma estratégia de análise de dados diádica (APIMeM, Ledermann & Macho, 2009), que possibilitou o exame simultâneo de efeitos ator (intra-individuais) e parceiro (inter-individuais) nas díades crianças-pais, este estudo focou-se na compreensão do modo como coesão familiar, estigma e QdV de crianças com epilepsia e seus pais, se encontram associados.

Os resultados do Estudo IV corroboram o papel da coesão familiar na compreensão da variabilidade da QdV de crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica, em consonância com os resultados do Estudo III, e em linha com estudos anteriores onde é enfatizada a relevância dos fatores familiares positivos como a satisfação com as relações familiares, recursos familiares e mestria, para a adaptação dos membros individuais da família (Austin et al., 2010; Ferro et al., 2011b).

O papel prejudicial das percepções de estigma na QdVRS de crianças com epilepsia que encontrámos encontra apoio em evidências empíricas anteriores (Austin et al., 2015; Y. Wu et

al., 2014) que revelam que uma parte significativa de crianças e adolescentes com epilepsia receiam serem percebidos como diferentes, alvo de gozo ou sofrerem de isolamento social (Austin et al., 2006; Jacoby & Austin, 2007). Para além disso, o estigma pode funcionar como barreira ao acesso e uso de serviços educacionais, médicos, sociais, bem como ao usufruto de atividades recreativas (Painter et al., 2014; Wagner, Sample, et al., 2009), restrições e limitações com um efeito negativo na QdVRS das crianças (K. Wu et al., 2008).

A associação negativa entre coesão familiar e percepção de estigma constitui um contributo inovador do nosso estudo. Crianças e pais que percebem as suas famílias como mais coesas evidenciam menor propensão para a experiência do estigma (efeito ator/individual). Este resultado vai de encontro a resultados de investigações anteriores que demonstram que falta de informação ou de apoio emocional constituem dois dos preditores mais importantes da percepção de estigma em crianças com epilepsia (McNelis et al., 2007). Contrariamente ao que havido sido hipotetizado, o modo como as crianças e/ou os pais individualmente percebiam a coesão familiar não estava associado ao modo como o outro elemento da díade percebia o estigma em relação à epilepsia (efeito parceiro/diádico). É sobretudo o modo como cada pessoa percebe a coesão familiar que está associado às suas percepções de estigma.

Os resultados confirmam em parte, a hipótese de mediação, i.e., da coesão familiar funcionar como recurso para lidar de forma positiva e proactiva com os desafios adicionais impostos pela epilepsia na vida da família e seus elementos individuais, designadamente com o estigma da doença, e disto conduzir a melhores resultados de QdV, para as crianças. Quando estas avaliam as suas famílias como mais coesas, poderão sentir-se mais confiantes em relação à capacidade e disponibilidade do contexto familiar para responder às suas necessidades, medos e preocupações em relação à vida em geral, e também em relação à epilepsia, o que se traduz numa melhoria da sua QdV. Em contrapartida, no contexto de uma família percebida como distante ou conflituosa, as oportunidades da criança para expressar e discutir abertamente os seus receios, incertezas e medos (por exemplo, medo de reações negativas dos outros, no caso de uma crise ter lugar em público), serão reduzidas, aspeto passível de ter implicações na percepção de estigma e QdVRS. O facto do efeito indireto da coesão familiar por via da percepção de estigma não se ter registado nos pais poderá dever-se, em parte, à baixa magnitude da associação entre percepções de estigma e QdV dos pais. Entre as explicações possíveis para esta baixa associação estão o facto de, no presente estudo, termos pedido aos pais para avaliarem o quanto consideravam que os seus filhos estariam ou poderiam vir a ser alvo de estigmatização, e não o grau em que eles próprios se sentiam estigmatizados pela circunstância do seu filho/a ter epilepsia, fenómeno designado de estigma de cortesia (Perlick et al., 2007). É comum os cuidados familiares de doentes com doenças estigmatizantes passíveis de ser mantidas em segredo (e.g., VIH, doença mental grave), sofrerem de problemas físicos e mentais e evitarem

possíveis fontes de apoio social para se protegerem de uma eventual rejeição, embaraço ou vergonha, o que, por seu turno, pode traduzir-se num impacto negativo expressivo ao nível da respetiva QdV.

Os resultados do Estudo IV confirmam a influência que os pais exercem na adaptação dos filhos: quanto mais os pais percebem a família como coesa, mais os filhos reportam níveis superiores de QdV. Duas possíveis explicações podem ser dadas para este efeito parceiro/diádico. Uma das tarefas considerada desafiante pelos pais de crianças com epilepsia reside em levar os filhos a falar sobre a sua epilepsia (McNelis et al., 2007). Deste modo, quanto mais os pais estiverem comprometidos e sintonizados com as necessidades da sua família em geral, e dos seus filhos em particular, mais capazes estarão de facultar o apoio necessário, responder e tomar iniciativas no sentido de, por um lado, dar respostas às necessidades emocionais e de informação acrescidas dos seus filhos, e por outro, compreender e respeitar a sua busca de normalidade, percebendo em que altura será apropriado trazer a epilepsia para o centro da agenda familiar (Verhey et al., 2009), e deste modo contribuir para uma melhor QdV da criança. Para além disso, os pais constituem importantes mediadores das relações da criança com vários agentes dos sistemas de educação, saúde; e na tomada de iniciativas e a realização de decisões sobre o tratamento (Wagner, Sample, et al., 2009; K. Wu et al., 2008), comportamentos que em última instância influenciam a QdV das crianças. Contrariamente ao que tínhamos previsto, as perceções de estigma de pais não tiveram um impacto negativo na QdVRS dos filhos (efeito parceiro). É possível que quando os pais se dão conta que os seus filhos estão a ser alvo de estigmatização por parte de terceiros ou se sentem estigmatizados, estes adotem medidas no sentido de contrariar o impacto do estigma e otimizar a QdVRS dos seus filhos. Uma explicação alternativa é a de que quando as crianças experienciam estigma, não o comunicam aos pais, no sentido de não os preocupar, uma vez que querem preservar um sentido de normalidade nas suas vidas. Esta hipótese tem apoio nos resultados de estudos anteriores que comparam respostas de pais e de filhos a questionários sobre a QdVRS da criança, e onde ficou patente que as áreas de maior discordância residiam nos domínios das preocupações e do secretismo (Ronen et al., 2003b; Verhey et al., 2009).

Apesar de serem expectáveis influências mútuas pais-filhos na adaptação, os nossos resultados apenas colocaram em evidência a influência dos pais na adaptação dos filhos, e não o contrário. Um padrão de resultados semelhantes foi encontrado noutros estudos (Driscoll et al., 2012; S. Santos et al., 2015). Questões desenvolvimentais e metodológicas poderão explicar este resultado. Atendendo à idade, é expectável que a maioria das influências sejam exercidas por via dos pais, nos filhos. As influências dos filhos para pais poderão ser menos pronunciadas em termos de magnitude, e o nosso estudo não ter tido poder estatístico suficiente para as detetar.

Estudos prévios na epilepsia pediátrica têm mostrado que as famílias sujeitas a maiores dificuldades financeiras (Shore et al., 2002), com filhos adolescentes (Moreira, Carona, et al., 2013) e com epilepsia de maior gravidade (C. Reilly et al., 2015) estão em risco acrescido para níveis inferiores de QdV. O facto de os nossos resultados terem sugerido a invariância do modelo nos distintos grupos clínicos, etários e de nível socioeconómico é revelador de que as relações familiares positivas parecem constituir um recurso importante para a QdV de pais e de filhos, independentemente dos níveis de gravidade da epilepsia, do grupo etário (crianças vs. adolescentes), e nível socioeconómico.

No Estudo V, focámo-nos no papel de outra variável familiar global – o significado dos rituais familiares, e testámos um mecanismo de atuação dessa variável nos resultados de adaptação de pais de crianças com epilepsia, por via de duas dimensões da variável individual competência parental: satisfação e eficácia parental. Destacamos os seguintes resultados:

-Os pais que reportaram níveis mais elevados de significado dos rituais familiares foram também os que se consideraram mais satisfeitos e eficazes no papel parental, e que reportaram melhor adaptação (valores inferiores de sintomatologia depressiva e ansiosa e melhor QdV).

-A hipótese de mediação foi apoiada pela maioria dos resultados obtidos. O significado dos rituais familiares associou-se direta e indiretamente ao nível de sintomatologia depressiva e QdV dos pais, tanto por via da satisfação, como da eficácia parental - no caso dos sintomas depressivos, a força dos dois mecanismos foi semelhante; no caso da QdV, o efeito indireto do significado dos rituais familiares exerceu-se sobretudo por via da satisfação parental. Relativamente à associação entre significado dos rituais familiares e sintomas ansiosos, esta revelou-se apenas indireta por via da satisfação parental (e não da eficácia parental).

-O modelo de mediação hipotetizado revelou-se igualmente válido: i) para pais de crianças (8-12 anos) e pais de adolescentes (13-19 anos); ii) em pais cujos filhos apresentavam epilepsia de baixa e de moderada/elevada gravidade; iii) em famílias com nível socioeconómico baixo e de nível socioeconómico médio/elevado.

O significado atribuído aos rituais familiares constitui um recurso vital para as famílias, particularmente em tempos de maior instabilidade ou em momentos de transição (Fiese & Wamboldt, 2000; Markson & Fiese, 2000). Apesar da maior parte das famílias ter os seus próprios rituais familiares, as famílias diferem na forma específica como os praticam ou no significado que atribuem à sua realização. Para famílias confrontadas com uma condição de saúde como a epilepsia, marcada pela imprevisibilidade e pelo estigma social, a capacidade da família para investir e planear rituais familiares significativos como a celebração dos aniversários ou de datas importantes como o Natal, que geralmente envolvem encontros com a família alargada ou rede de amigos, poderá ser particularmente relevante para a adaptação dos membros individuais

da família. Dada a escassez de estudos a analisar a adaptação individual dos pais no contexto da epilepsia pediátrica, e considerando o papel inexplorado do significado dos rituais familiares na epilepsia pediátrica, desenvolveu-se um estudo para testar a influência do significado dos rituais familiares em três indicadores de adaptação dos pais (sintomatologia ansiosa e depressiva, e QdV). Adicionalmente, e partindo de uma pista de investigação avançada por Spagnola e Fiese (2007) que propuseram que o significado atribuído aos rituais familiares poderia ser considerado uma janela para as representações e crenças que os pais sustentam sobre a sua capacidade para exercerem eficazmente o seu papel de pais, foi testado o papel da competência parental nas associações entre rituais familiares e indicadores de adaptação dos pais. Os nossos resultados, mostraram que o significado dos rituais familiares se associava direta e indiretamente, por via das associações positivas com a satisfação e eficácia parental, aos resultados positivos de adaptação individual dos pais.

As associações significativas encontradas entre o significado dos rituais familiares e os indicadores positivos de adaptação individual dos pais são resultados pioneiros na epilepsia, encontrando apoio em estudos realizados com famílias com outras CCSP, como a asma ou o cancro pediátrico (Markson & Fiese, 2000; S. Santos et al., 2015). Diferenças no investimento emocional nos rituais foram associadas com variações na satisfação com as relações familiares, em particular, com a coesão familiar (Crespo et al., 2008). Os resultados sugerem que o envolvimento frequente em interações familiares imbuídas de significado, designadamente a família juntar-se na hora de jantar ou celebrar ocasiões especiais em família, tal como aniversários ou outras datas importantes para a família, pode fomentar e fortalecer os laços e promover um sentido de compromisso, entajuda e proximidade entre os elementos da família. De facto, e independentemente das suas idiosincrasias, para muitas famílias atuais, a hora de jantar poderá ser um dos poucos momentos do dia em que a família toda se junta, de forma consistente, ao longo dos dias, constituindo um momento privilegiado para que se fazer um balanço dos dias, para se dar conta das últimas novidades, discutir assuntos de família, coordenar agendas e planos, acertar a distribuição de tarefas (Fiese, 2006b, 2007).

Estes contextos relacionais são passíveis de proporcionar aos pais uma oportunidade para irem de encontro às necessidades de informação e apoio emocional que os seus filhos possam ter, relativamente à vida em geral, e eventualmente, em relação a temas relacionados com a epilepsia (Austin et al., 2014; Dickstein, 2002; McNelis et al., 2007). Esta janela de oportunidade para o diálogo familiar pode ajudar os pais a lidarem com o stress e consequentemente prevenir a elevação dos níveis de ansiedade e depressão e conduzir a uma melhor QdV (Crespo et al., 2013; Shore, Austin, & Dunn, 2004). Os rituais familiares oferecem igualmente um caminho para a sustentação um sentido de controlo e de constância à família no seu todo (Wolin & Bennett, 1984). Tal permite à família viver momentos onde todos sabem o

que esperar e ajudar a colocar "a doença no seu lugar" (Gonzalez et al., 1989). Tal poderá revestir-se de particular importância para famílias que têm de lidar de forma continuada com o caráter súbito e imprevisível das manifestações epiléticas, bem como com o curso e consequências de uma condição de saúde, em larga medida, imprevisível.

Ser pai/mãe de uma criança com epilepsia suscita um conjunto de desafios e interrogações adicionais no âmbito do exercício da parentalidade. Aprofundar os temas da parentalidade na epilepsia é relevante dado que uma meta-análise recente destacou o facto dos pais de crianças com epilepsia apresentarem um risco acrescido para práticas parentais ineficazes, comparativamente a pais de crianças com outras condições crónicas de saúde pediátricas (Pinquart, 2013). As associações positivas entre o significado dos rituais familiares e as duas dimensões da competência parental são dados novos na área da epilepsia pediátrica e na Psicologia da Família em geral. Bandura (1995) defendeu que o modo mais eficaz de criar um sentido de eficácia forte é através de experiências de mestria. Tendo em conta que os rituais familiares podem ser percebidos como contextos importantes para a parentalidade em diferentes etapas do desenvolvimento das famílias e dos indivíduos (Fiese et al., 2006; Fiese et al., 1993), quanto mais os pais investirem tempo e recursos na criação e manutenção de acontecimentos especiais que envolvam toda a família, proporcionando ambientes ricos em envolvimento familiar e trocas afetivas (Crespo, 2011; Fiese et al., 2002), mais competentes se poderão sentir no seu papel de pais, e tal acarretar menor risco de desajustamento emocional (e.g., sintomas ansiosos e depressivos) e melhor QdV.

De acordo com a teoria da auto-determinação (Ryan, Deci, & Grolnick, 1995) os pais promovem a adaptação nos seus filhos ao proporcionarem um contexto relacional que vá de encontro às necessidades psicológicas básicas de autonomia, sentido de competência e relação dos filhos. Por conseguinte, três componentes-chave de uma parentalidade bem-sucedida são: o apoio à autonomia, o proporcionar um ambiente estruturado (vs. caótico); e o envolvimento e apoio afetivo (Ryan, Deci, Grolnick, & La Guardia, 2006). Dado que os rituais familiares incluem elementos de planeamento, afetividade e significado simbólico (Fiese, 2006a; Fiese, Spagnola, et al., 2008), conferindo estrutura, previsibilidade e significado ao tempo e espaço da vida familiar, o investimento na realização de rituais familiares significativos, ao enquadrarem-se no contexto mais vasto de ambiente familiar apoiante e emocionalmente positivo, poderão constituir um território fértil para a promoção de um sentido de eficácia e satisfação no papel de pais.

Apesar de todos os elementos da família participarem nos rituais, os pais integram o subsistema executivo, e são considerados protagonistas na organização e realização destes mesmos acontecimentos (Minuchin, 1974). Pais que evidenciam uma convicção mais forte acerca da importância destes eventos em famílias, onde todos participam, e o facto de sustentarem expectativas positivas em torno da realização destes encontros, como sendo momentos

agradáveis e mutualmente significativos, poderá fazer com que se sintam recompensados e motivados no seu papel de pais. Adicionalmente, os pais que se envolvem em rituais familiares com mais frequência, terão maior probabilidade de se sentirem confortáveis e realizados no seu papel, o que por sua vez conduz a uma maior probabilidade destes rituais familiares virem a ser mantidos ao longo do tempo (Brody & Flor, 1997; Porter & Hui-Chin, 2003).

Uma comparação da força das trajetórias indiretas a ligar o significado dos rituais familiares a dois dos indicadores de adaptação parental (sintomas depressivos e QdV) apenas revelou uma diferença: a trajetória indireta entre significado dos rituais familiares e sintomatologia depressiva materna via satisfação parental revelou-se mais forte do que a trajetória via eficácia parental. Estes resultados sugerem que os rituais familiares podem contribuir para uma melhor adaptação dos pais tanto por via do incremento da satisfação parental, quer pelo seu papel no proporcionar de oportunidades para aprenderem e desempenharem comportamentos parentais mais eficazes, sendo a primeira trajetória de influência de maior magnitude. Em relação à sintomatologia depressiva, a dimensão de satisfação poderá ser particularmente relevante, dada a afetividade positiva que a realização dos rituais fomenta, comparado com o sentido de eficácia.

As associações testadas foram válidas independentemente da gravidade clínica da epilepsia dos filhos, do seu grupo etário e do nível socioeconómico da família. Apesar de epilepsias mais graves poderem acarretar exigências acrescidas sobre os pais em termos de supervisão, restrições de atividades, lidar com o estigma (Austin et al., 2000; Rodenburg et al., 2013b), tal não parece comprometer os benefícios que o significado dos rituais trazem à adaptação individual dos pais. Também de acordo com os nossos resultados, mesmo no contexto de adversidade económica (pais provenientes de níveis socioeconómicos mais baixos), o facto de os pais investirem na promoção e preservação de momentos significativos em família, conduzirá a que se sintam mais satisfeitos e confiantes, a evidenciarem níveis de sintomatologia ansiosa e depressiva mais baixos, bem como melhor QdV. Este dado é particularmente relevante dado que Portugal atravessou recentemente uma grave crise socioeconómica, que acarretou taxas elevadas de desemprego e baixos salários (Fonseca, Cunha, Crespo, & Relvas, 2016). Relativamente à idade das crianças, e apesar das diferenças expectáveis entre crianças e adolescentes, o papel do significado dos rituais e da competência parental nos indicadores de adaptação individual dos pais revelou-se igualmente válido e significativo nos dois grupos de pais.

No Estudo VI, focámo-nos na análise do papel de duas variáveis relativas ao funcionamento familiar no contexto das CCSP (dificuldades na vida familiar e vida diária da criança) em dois indicadores de adaptação individual nas crianças com epilepsia (perceção de

estigma e QdVRS), e testámos o papel moderador da orientação para a comparação social dos pais, nessas associações. Destacamos, como principais resultados, os seguintes:

-Quanto mais os pais percebiam dificuldades no lidar em família com a epilepsia ou quando mais consideram que a vida do seu filho/a era afetada pela epilepsia, piores eram os resultados nos indicadores de adaptação dos filhos (pior QdVRS e maiores percepções de estigma); no entanto estas associações só se revelavam significativas nas famílias cujos pais apresentavam níveis elevados de orientação para a comparação social e não quando os pais apresentavam níveis de orientação para a comparação social baixos ou moderados, resultados independentes do grau de gravidade clínica da epilepsia.

Para os pais, a epilepsia representa uma fonte permanente de incerteza e ameaça relativamente ao estado de saúde atual e futuro dos filhos, designadamente devido à imprevisibilidade das crises e do curso da doença (Berg & Rychlik, 2015; Fastenau et al., 2004; McNelis et al., 2007). Nestas circunstâncias, dados de investigação na área da Psicologia da Saúde revelam que doentes e famílias demonstram uma necessidade acrescida de informação de cariz comparativo, proveniente de outros que entendam como semelhantes a si, ou que estão a atravessar circunstâncias de vida semelhantes (Buunk et al., 2012; Hodges & Dibb, 2010). Tal permite às pessoas avaliar a sua própria situação de saúde/doença (e dos seus filhos), o que em última instância poderá ajudá-los a ganhar e manter um sentido de controlo percebido sobre a situação e melhorar o respetivo bem-estar (Arigo et al., 2012; Van der Zee, Buunk, Sanderman, Botke, & van den Bergh, 2000). As pessoas distinguem-se na propensão individual para procurarem e se envolverem em comparações sociais, característica de personalidade designada por orientação para a comparação social (Gibbons & Buunk, 1999). Apesar da relevância da orientação para a comparação social no contexto geral da adaptação das condições crónicas de saúde em adultos, o respetivo impacto em indicadores de adaptação de crianças, não tem sido alvo de análise. O Estudo VI visou superar tais limitações ao nível dos conteúdos de investigação, contribuindo com resultados inovadores na área da epilepsia pediátrica.

No global, os resultados apoiam a hipótese de que níveis elevados de orientação para a comparação social dos pais constituem um fator de vulnerabilidade para piores resultados de adaptação nas crianças - maior percepção de estigma e níveis inferiores de QdVRS - exacerbando o risco em contextos de adversidade (Rose et al., 2004). Estes resultados, no seu conjunto, dão suporte empírico à noção de que os pais desempenham um papel central na forma como a epilepsia é gerida na família, e no modo como as crianças lidam com a sua condição, e o impacto que esta tem nas suas vidas.

Muito concretamente, quando os pais percecionam a vida dos seus filhos como muito diferentes da de outras crianças da mesma idade devido à sua condição de saúde (em termos de amizades, atividades, desempenho), ou percebem como maiores as dificuldades na gestão familiar

da epilepsia, os seus filhos tendem a revelar níveis superiores de estigma, mas apenas nas famílias cujos pais evidenciam uma propensão maior para compararem a sua situação de vida (e a dos seus filhos), com a de outras pessoas. Estudos anteriores no contexto de outras condições de saúde estigmatizantes (défice cognitivo, HIV) e respetivos cuidadores familiares demonstram que a forma como os doentes se percebem a si próprios em comparação com os outros constitui uma peça-chave na experiência da estigmatização efetiva ou antecipada (Dagnan & Waring, 2004; Finlay, Dinos, & Lyons, 2001). Foram também encontradas associações positivas entre frequência de realização de comparações sociais e estigma percebido pelos pais de crianças com condições médicas raras (Bolner, 2012).

Pais com elevada orientação para a comparação social poderão ter maior dificuldade em se distanciarem dos efeitos negativos do estigma em relação à epilepsia, dada a sua maior sensibilidade à possibilidade dos filhos se sentirem tratados como diferentes ou serem alvo de estigmatização. Com o intuito de proteger os seus filhos, os pais poderão limitar a revelação do diagnóstico, mantê-lo em segredo, ou restringir a sua participação em atividades sociais e recreativas (Austin, MacLeod, et al., 2004; Painter et al., 2014). Estudos recentes revelam que esta estratégia parental de sobreproteção tende a associar-se a níveis superiores de estigma (A. Benson et al., 2016), fazendo com que estas crianças se sintam diferentes das outras, mais vulneráveis ao escrutínio e/ou discriminação social (Carlton-Ford et al., 1997), bem como a uma diminuição de expectativas parentais em relação às capacidades dos seus filhos com epilepsia (Rodenburg et al., 2013a).

Para a interpretação dos nossos resultados, é importante ter em consideração que a maioria das famílias que compunham a amostra do estudo já lidavam com a epilepsia há pelo menos dois anos. Se níveis mais elevados de dificuldades e preocupações parentais poderão ser considerados adaptativos no primeiro ano pós-diagnóstico, a sua persistência no tempo pode traduzir dificuldades mais profundas em lidar com a epilepsia do filho/a. De facto, e em face da elevada prevalência de comorbilidades (Austin et al., 2011; Ostrom et al., 2005), é comum os pais de crianças com epilepsia expressarem dificuldades e insatisfação no acesso a recursos, nos domínios académico e terapêutico, em qualidade e quantidade suficiente, para fazer face às necessidades dos seus filhos (K. Wu et al., 2008), e a revelarem insatisfação com necessidades não atendidas de intervenção junto das suas famílias, bem como a revelarem dificuldades no relacionamento com os sistemas de apoio (e.g., família extensa, estruturas de apoio na comunidade) (K. Wu et al., 2008). No âmbito deste cenário de desencontro provável entre necessidades de apoio sentido e respostas efetivamente conseguidas da parte dos sistemas formais e informais de apoio, os pais de crianças com epilepsia estarão em risco acrescido de experienciar comparações sociais desfavoráveis (i.e., com pessoas que percebem como estando numa situação mais favorável), em diversas dimensões do seu funcionamento individual

e familiar, e poderão sentir que tanto eles próprios (como os seus filhos), se encontram em posição de inferioridade social. Uma outra explicação possível para as associações entre maiores dificuldades familiares na gestão familiar da epilepsia e percepção de estigma pelas crianças cujos pais evidenciam níveis elevados de orientação para a comparação social, reside no facto de os pais que se sentem mais sobrecarregados com as responsabilidades da gestão familiar da epilepsia, poderão estar também menos capazes de proporcionar um ambiente familiar apoiante para os seus filhos, limitando as oportunidades das crianças expressarem e discutirem de modo aberto e espontâneo os seus medos e incertezas (e.g., as possíveis reações dos colegas no caso de presenciarem uma crise), o que pode conduzir à experiência de níveis superiores de estigma.

O efeito das percepções parentais mais negativas relativas ao impacto da epilepsia na vida diária dos seus filhos nas avaliações que as crianças fazem da respetiva QdVRS, é um resultado do nosso estudo, que encontra apoio em investigações anteriores (Carlton-Ford et al., 1995; Cianchetti et al., 2015), designadamente no âmbito das pesquisas em torno do *Síndrome da criança vulnerável* (Green & Solnit, 1964). A inovação introduzida pelo nosso estudo foi a especificação das condições em que essa associação é significativa: apenas em famílias cujos pais evidenciam níveis médios ou elevados de orientação para a comparação social. A maior dependência de informação comparativa na forma como se avaliam (a si e aos seus filhos) pode acarretar consequências negativas nos resultados de adaptação. Indivíduos com maior orientação para a comparação social são mais propensos a experienciar ansiedade e a depressão (Gibbons & Buunk, 1999; White et al., 2006), e a sentirem-se menos confiantes na sua capacidade para gerirem a sua vida em geral, e a responderem com maior intensidade a evidências comparativas desfavoráveis (Arigo et al., 2012; Dibb & Yardley, 2006). É possível que pais com níveis de orientação para a comparação social moderados ou elevados apresentem um nível excessivo de preocupação parental passível de afetar negativamente a QdVRS dos seus filhos, designadamente por via de adoção de comportamentos e atitudes sobreprotetoras ou permissivas (Cianchetti et al., 2015; Rodenburg et al., 2013a). Trata-se de uma hipótese de um mecanismo explicativo a explorar em estudos futuros.

De igual forma, as dificuldades na vida familiar associaram-se negativamente à QdVRS da criança, mas apenas nas famílias com pais com níveis médios ou elevados de orientação para a comparação social. A associação negativa entre dificuldades na gestão familiar da epilepsia e a QdVRS reportada pelas crianças dessas famílias com epilepsia, encontra apoio em evidências empíricas prévias (C. Jones & Reilly, 2016; Y. Wu et al., 2014). Pais de crianças com epilepsia revelam frequentemente preocupações em relação à escassez e ao carácter impreciso da informação que lhes é disponibilizada pelos prestadores de cuidados de saúde; tais preocupações são passíveis de interferir com a gestão adequada da condição de saúde dos seus filhos, bem

como os níveis de adaptação próprios e dos seus filhos/as (McNelis et al., 2007; Shore et al., 2009). Estudos na área da comparação social revelam que as pessoas com elevada orientação para a comparação social apresentam níveis superiores de incerteza, sentem-se mais confusos em relação a si próprios, são mais propensos a experienciarem emoções negativas quando confrontadas com informação comparativa desfavorável (Bennenbroek et al., 2002), e a adotarem um estilo de *coping* mais evitante no confronto com dificuldades (Van der Zee et al., 2000). Deste modo, no contexto de dificuldades familiares acrescidas, os pais com maior orientação para a comparação social poderão privilegiar a adoção de medidas no sentido de se protegerem a si e aos seus filhos de reações negativas de terceiros, e a estarem menos propensos a tomarem iniciativas concretas para ultrapassarem tais dificuldades. Em contrapartida, pais com menor orientação para a comparação social poderão ser mais proativos em lidar com situações desafiantes com que se vão confrontando, sejam ou não diretamente relacionados com a epilepsia, com consequências positivas na QDVRS dos seus filhos.

2 Síntese dos principais contributos da presente investigação

O presente trabalho de investigação integra contributos relevantes para a compreensão dos resultados e processos de adaptação de famílias no contexto da epilepsia pediátrica. Em seguida apresenta-se uma síntese dos mesmos, à luz das lacunas identificadas (cf. Ponto 5 do Capítulo I), que poderão contribuir para colmatar.

A nível nacional, o presente estudo é um dos primeiros estudos a estudar a adaptação na epilepsia pediátrica, colocando o foco sobre a família. Ainda que a investigação se tenha realizado com uma amostra de famílias portuguesas, procurámos dar resposta a questões relevantes para os contextos nacional e internacional, colmatando a lacuna relativa à escassez de estudos em torno do papel das variáveis familiares globais na investigação adaptação na epilepsia pediátrica (cf. ponto 5.1.3.). As questões que nortearam os nossos objetivos de investigação e contribuíram para a formulação de hipóteses, basearam-se numa extensa revisão de literatura sobre a adaptação individual no contexto das condições crónicas de saúde pediátricas em geral, e da epilepsia pediátrica em particular, procurando, sempre que possível, atender a especificidades do ponto de vista social, cultural, legal e económico do contexto português.

Respondendo à necessidade de alicerçar a investigação em referenciais teórico-conceptuais consistentes, referida na primeira lacuna no plano conceptual (cf. Ponto 5.1.1.), a presente investigação, centrada na compreensão da adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, foi ancorada no modelo socioecológico de adaptação e mudança, (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), que enfatiza os múltiplos níveis sistémicos de influência na adaptação individual. Nesta medida, procurou-se identificar fatores modificáveis em diferentes níveis sistémicos associados a resultados da adaptação individual das crianças com epilepsia e dos seus pais.

A realização do estudo comparativo, integrando a epilepsia e três outras condições crónicas de saúde pediátricas, permitiu-nos situar a adaptação individual e a qualidade do funcionamento familiar das famílias no contexto específico da epilepsia pediátrica em relação a famílias afetadas por CCSP distintas (asma, obesidade e diabetes). Este estudo contribuiu para parcialmente responder à lacuna referente à escassez de estudos comparativos (ponto 5.1.2.), que incluam a epilepsia pediátrica na análise das comunalidades/diferenças entre CCSP e clarificar algumas perspetivas teóricas em torno do impacto das CCSP na família (categoriais vs. não categoriais)(Thompson & Gustafson, 1996). Os resultados do estudo comparativo permitiram refletir criticamente sobre a ideia subjacente a alguma da literatura na epilepsia pediátrica, onde a epilepsia é concebida como das CCSP com mais impacto negativo na vida das crianças e suas famílias (Rodenburg et al., 2005; Rodenburg et al., 2011).

Visando superar lacunas identificadas ao nível do tipo de questões a que a investigação visa dar resposta, onde tem sido privilegiado um enfoque descritivo em detrimento de uma

abordagem compreensiva (cf. ponto 5.2.1.), e consistente com recomendações preconizadas para investigação na área da Psicologia Pediátrica (Holmbeck, 2002a; Rose et al., 2004), a presente investigação procurou compreender a variabilidade dos resultados de adaptação de crianças com epilepsia e seus pais, examinando processos explicativos específicos de mediação e de moderação, através dos quais fatores situados a diferentes níveis sistémicos, exercem a sua influência nos resultados da adaptação, utilizando para tal múltiplos informadores (pai, criança, médico assistente). Ao mapear o modo como as famílias funcionam no contexto das CCSP, os resultados da presente investigação viabilizaram uma leitura mais integrada dos resultados e processos de adaptação no contexto da epilepsia pediátrica.

Procurando colmatar lacunas ao nível da conceptualização e avaliação das variáveis familiares na investigação da adaptação na epilepsia pediátrica (pontos 5.1.3. e 5.2.2.), na presente investigação foi dado particular destaque à análise dos fatores familiares globais ainda pouco estudadas na área da epilepsia pediátrica, tendo-se integrado no protocolo de investigação medidas familiares globais no contexto geral (coesão familiar, significado dos rituais familiares) e medidas familiares globais no contexto das CCSP (dificuldades na vida familiar, mutualidade parental, entre outras).

A opção por um foco múltiplo, nas crianças (e adolescentes) com epilepsia, nos respetivos dos pais (mãe/pai), e nas relações que interdependência entre si, foi congruente com a perspetiva diádica privilegiada no trabalho, que procurou responder à necessidade de atender à interdependência de dados na díade crianças-pais, uma lacuna metodológica identificada na literatura atual (cf. ponto 5. 2.6). Ao explorarmos as influências mútuas na adaptação dos dois membros da díade pais-filhos, baseámo-nos no APIMeM (Ledermann et al., 2011) uma estratégia de análise de dados diádica que possibilita o exame simultâneo de efeitos ator (intra-individuais) e parceiro (inter-individuais) entre elementos da díade família, mas ainda muito pouco utilizado no contexto da investigação na epilepsia pediátrica. A elevada taxa de participação das famílias convidadas a integrar o projeto, e o facto de o processo de recolha de amostra se ter estendido por um período temporal prolongado (cerca de 33 meses), conduziu à obtenção de uma amostra total de famílias que se pode considerar alargada (N=522, das quais 282 com crianças com epilepsia). O tamanho da amostra viabilizou o recurso privilegiado a técnicas de análise estatística de dados mais robustas – análises de equações estruturais – que apesar das vantagens associadas, permanece pouco utilizada na investigação nesta área -, e a análise de modelos explicativos mais complexos, com a consideração simultânea de um número superior de variáveis. Tais opções conceptuais e metodológicas permitiram examinar modelos teóricos complexos e clarificar o impacto relativo de tipos distintos de variáveis familiares, individuais e clínicas, nos indicadores de adaptação de pais e de filhos.

Colmatando a lacuna referente ao tipo de indicadores de adaptação utilizados na investigação (cf. ponto 5.2.4), maioritariamente centrados em dimensões negativas do funcionamento psicológico das crianças com epilepsia ou dos seus pais, na presente investigação foi adotada de uma abordagem multidimensional de adaptação, com a avaliação de múltiplos indicadores, incluindo indicadores positivos e específicos como a QdV/QdVrS, para além de indicadores de sintomatologia ansiosa e depressiva. Esta decisão parece-nos particularmente relevante no caso da epilepsia pediátrica, dado a ampla diversidade de impactos possíveis, tanto na criança como nos pais e na família como um todo (cf. capítulo enquadramento teórico). Globalmente os resultados nos indicadores de adaptação de crianças com CCSP e seus pais indicam que apesar dos desafios acrescidos impostos pela circunstância de terem de lidar diariamente com necessidade de saúde especiais e prolongadas; a maioria evidencia valores positivos, resultado que vai de encontro à perspetiva amplamente difundida na literatura da psicologia pediátrica que considera que “*most families with chronically ill children are healthy families who happen to be faced with difficult circumstances*” (Holmbeck et al., 2002, p. 177).

Procurando responder à lacuna metodológica referente à escassez de estudos na área da epilepsia pediátrica que utilizem as crianças como informadoras relativamente a áreas, temas e/o dimensões do funcionamento desta (cf. ponto 5.2.5), a Fase III fez uso de auto-relatos das crianças e apenas integrou famílias com crianças com epilepsia com idade igual ou superior a 8 anos - amplamente considerada na literatura como o ponto de corte para garantir um nível de compreensão da linguagem que viabilize o preenchimento fidedigno do protocolo e investigação por parte das crianças.

Na presente investigação (Fases II e III), o facto de se ter definido como critério de inclusão um tempo mínimo de diagnóstico - superior a seis meses, permitiu analisar as associações testadas fora da influência da crise inicial do diagnóstico, consistente com o que está referido na literatura (e.g., Ramsey et al., 2016; Rood et al., 2014b), e que confere maior consistência à interpretação dos resultados. A escolha das variáveis, designadamente gestão familiar da CCSP, foi consistente com esse foco nos fenómenos de adaptação, e não de ajustamento inicial. Também o facto de ter sido definido como critério de exclusão a presença de défice cognitivo ou de atraso de desenvolvimento global na criança, aliada à opção metodológica de ter sido avaliada a gravidade objetiva da epilepsia (Fase III), cujo relato foi efetuado pelo médico neuropediatra, possibilitou a análise e/ou controlo adequado da influência das variáveis clínicas nos resultados de adaptação, ao invés de uma agregação indiferenciada de participantes. Adicionalmente, as famílias foram classificadas em termos de nível socioeconómico (baixo vs. médio/elevado) de pertença, e grupo etário da criança com epilepsia (crianças vs. adolescentes). Este conjunto de opções e iniciativas metodológicas visaram colmatar a lacuna referente à caracterização inconsistente ou pouco clara das variáveis clínicas e sociodemográficas

(cf. 5.2.3.). De facto, a não consideração aquando da definição dos critérios de inclusão/exclusão da amostra de investigação, ou da análise e discussão dos resultados, é passível de comprometer a solidez das conclusões retiradas e respetiva generalização. A consideração de uma perspetiva desenvolvimental sobre os processos de adaptação da criança e dos seus pais, almejada através da análise da invariância dos mecanismos de influência hipotetizados entre variáveis (Estudos IV e V) nas famílias com crianças e adolescentes, constituiu outro importante contributo do projeto. Destaca-se ainda o facto de esta investigação ter integrado famílias pertencentes a uma extensa área geográfica nacional, com recolha de amostra em quatro unidades hospitalares das regiões centro e sul do país, em simultâneo, e do facto das características principais da nossa amostra clínica (e.g., gravidade da epilepsia, controlo das crises, tempo desde o diagnóstico) serem semelhantes às descritas em outros estudos internacionais (e.g., Speechley et al., 2008).

Visando ultrapassar lacunas ao nível dos temas e conteúdos relevantes na investigação da adaptação em crianças e pais no contexto da epilepsia pediátrica (cf. ponto 5.1.4.), foram abordados, de forma pioneira, fatores como orientação para a comparação social e o significado dos rituais familiares. Tais construtos permitiram aprofundar a compreensão dos processos de adaptação das crianças e pais no contexto de famílias com epilepsia pediátrica, trazendo resultados inovadores. Nesta linha, os estudos de adaptação para Portugal de uma medida de orientação para a comparação social, a INCOM, construto com relevância nos processos de adaptação de pais e de filhos, tal como o demonstram os nossos resultados, e até agora inexplorada no contexto das CCSP, abre uma janela importante para o estudo dos fenómenos da comparação social na epilepsia pediátrica em particular.

3 Limitações

Apresentam-se, em seguida, as principais limitações da presente investigação a ter em conta na interpretação e discussão dos resultados. Consideramos que a principal limitação do nosso estudo diz respeito ao seu desenho transversal. Assim, e apesar das trajetórias direcionais testadas nos três modelos de mediação apresentados (Estudos III, IV e V) terem sido hipotetizadas de acordo com perspetivas teóricas reconhecidas na literatura, a natureza transversal dos estudos limitou a realização de inferências causais entre as variáveis, e implicou que os resultados fossem interpretados em termos de associações entre variáveis num determinado ponto do tempo. Para além disso, é provável que as relações entre variáveis do funcionamento familiar (global normativo ou no contexto de uma condição crónica de saúde) e os indicadores de adaptação individual sejam bidirecionais. No futuro, seria importante a realização de estudos longitudinais de modo a esclarecer quer a direção dos efeitos, quer a influência que, ao longo do tempo, as variáveis exercem entre si.

Uma segunda limitação da presente investigação prende-se com a adoção do método de amostragem por conveniência, que condicionou a representatividade das famílias, e que impõe limitações ao nível da generalização dos resultados. A maioria dos pais que integraram as nossas amostras eram do sexo feminino e provenientes de agregados familiares de baixo nível socioeconómico. Apesar de consistentes com o perfil de utilizadores do Serviço Nacional de Saúde Português (doentes e cuidadores familiares principais para questões de saúde), importa reconhecer que as características da nossa amostra podem ter influenciado os resultados, dadas as associações previamente atestadas na literatura entre NSE baixo e níveis inferiores de QdV e ajustamento psicológico, nas crianças e nos pais (Ferro, 2014; Shore et al., 2002). Famílias de baixo nível socioeconómico poderão ter mais dificuldade em aceder a serviços de saúde de qualidade, bem como acesso consistente a medicação e métodos de diagnóstico e tratamento adequados. Para além disso, as características da amostra inviabilizaram a análise das diferenças entre as perspetivas de pais e de mães, e requereram a dicotomização da variável nível socioeconómico (baixo vs. médio/elevado) em face do número diminuto de famílias provenientes de um nível socioeconómico médio ou alto. Deste modo, a generalização dos resultados para cuidadores do sexo masculino ou a famílias de nível socioeconómico médio/elevado que habitualmente recorrem aos serviços de saúde privados, deverá ser examinada em estudos posteriores.

Ao nível das características clínicas, a nossa amostra era composta maioritariamente por crianças com crises epiléticas bem controladas e com uma duração prolongada de diagnóstico (quatro anos, em média). Apesar das características principais da nossa amostra clínica (e.g., gravidade da epilepsia, controlo das crises, tempo desde o diagnóstico) serem semelhantes às descritas em outros estudos internacionais que integraram critérios de inclusão/semelhantes

(e.g., Speechley et al., 2008), importa reconhecer que os resultados podem não ser generalizáveis para todo o espectro das epilepsias pediátricas. No futuro, será importante replicar estes estudos em amostras clínicas compostas por famílias com crianças com limitações graves do ponto de vista cognitivo e do desenvolvimento, que representam cerca de um terço das famílias no contexto da epilepsia pediátrica (Wagner et al., 2015).

Um outro aspeto a ter em conta é a possibilidade de generalização dos resultados a outros contextos culturais. Atendendo às diferenças encontradas em estudos anteriores, designadamente ao nível da perceção do estigma por parte de doentes adultos provenientes de diferentes países europeus, - e onde os doentes portugueses reportaram, em média, valores mais baixos de estigma, comparativamente aos doentes adultos de outros países como a França ou a Polónia (Baker et al., 2000; Malmgren et al., 2003), bem como ao nível distinto dos conhecimentos em relação à epilepsia, acessibilidade a dos serviços médicos de qualidade (Doughty, Baker, Jacoby, & Lavaud, 2003; Malmgren et al., 2003), os resultados poderão não ser generalizáveis para outras culturas, mesmo no interior dos países ocidentais europeus.

Dada a complexidade do modelo de mediação diádico hipotetizado (Estudo IV), e do número de parâmetros a estimar, o tamanho da amostra, apesar de relevante para uma amostra clínica, poderá não ter sido o suficiente para proporcionar o poder necessário para detetar efeitos de pequena magnitude. Adicionalmente, quando testámos a invariância dos efeitos diretos e indiretos entre grupos clínicos distintos (Estudo III); ou com diferentes níveis de gravidade de epilepsia, NSE e grupo etário (Estudos IV e V), o tamanho das subamostras grupos em comparação foi reduzido significativamente (inferior ao recomendável de 100 a 200 por grupo, (Kline, 2011)), pelo que as conclusões ao nível da invariância entre grupos devem ser lidas com precaução. Estudos futuros deverão testar estes modelos de mediação em amostras mais alargadas de pais com filhos com epilepsia.

No caso específico dos Estudos III e V, o facto de os dados terem sido recolhidos junto de um único elemento da família e com base em um único método de recolha de dados (auto-relato), poderá comportar enviesamento em termos de resultados, i.e. sobrestimar as reais associações entre construtos que estamos a analisar. Tal exige o reconhecimento de que, até certo ponto, algumas das associações registadas se poderão dever à variância partilhada decorrente do facto de estarmos a utilizar um único método de recolha de dados (*single method bias*) ou de estarmos a recolher dados junto de um único participante (Podsakoff, MacKenzie, & Podsakoff, 2012).

Finalmente, as opções de mensuração das variáveis no presente estudo acarretaram algumas limitações. Por exemplo, um dos contributos pioneiros do presente projeto foi a consideração dos processos de comparação social dos pais, que se destacarem como fatores de influência relevantes nos *outcomes* de adaptação dos filhos com epilepsia. Contudo, reconhece-

se que o corpo teórico em torno dos fenómenos de comparação social reveste-se de elevada complexidade e diferenciação, patente na crescente produção científica na área, designadamente nas aplicações ao contexto da saúde e doença (Arigo et al., 2012; Buunk & Gibbons, 2007; Tennen et al., 2000). Atendendo à natureza exploratória do estudo, os processos de comparação social dos pais apenas foram examinados a um nível geral – orientação para a comparação social, descurando aspetos com a dimensão e direção em que a comparação social é realizada, ou quais são os alvos dessa comparação (Buunk, Zurriaga, Gonzalez, Terol, & Roig, 2006; Wood & VanderZee, 1997). Estudos prévios alertam também para a necessidade de considerar fatores contextuais, pessoais, bem como variáveis relacionadas com a doença, no estudo dos determinantes e implicações dos processos de comparação social (Arigo et al., 2012; Suls, 2003). Importa, por isso, colocar alguma prudência na leitura dos resultados e respetivas implicações, e aguardar por desenvolvimentos futuros da investigação na área.

Por fim, a opção pela utilização de medidas genéricas para avaliação da QdVRS nas crianças com epilepsia, bem como a utilização de medidas genéricas de avaliação da gestão familiar da epilepsia e de competência parental, apesar de compensadas com a utilização de medidas específicas para o contexto da epilepsia (e.g., perceção de estigma), pode ter limitado a sensibilidade dos estudos para a deteção de subtilezas em torno da adaptação individual da epilepsia nas crianças e nos seus pais.

4 Implicações para a investigação futura

Das questões que os nossos resultados permitiram levantar, a par das limitações que acabámos de identificar, decorrem implicações para investigação futura na área da epilepsia pediátrica.

Será importante, em estudos posteriores, proceder à replicação dos estudos que testaram hipóteses de mediação e moderação dos efeitos das variáveis familiares nos resultados de adaptação individuais de pais e de filhos, recorrendo a um desenho longitudinal. Este tipo de desenho permitirá analisar a direcionalidade e a magnitude dos efeitos que encontramos para algumas associações (e.g., explorar a influência da coesão familiar na perceção do estigma ou do significado dos rituais familiares na competência parental); identificar potenciais fatores de mudança ou de continuidade ao longo do tempo, e assim, complementar as nossas conclusões.

Atendendo ao carácter promissor dos resultados dos Estudo II e VI relativos à importância dos processos de comparação social dos pais nos resultados de adaptação quer dos pais, quer dos seus filhos, no contexto de famílias com condições crónicas de saúde, importa aprofundar esta área de investigação, tanto ao nível dos conteúdos específicos, como das associações com outras variáveis. Na presente investigação, a comparação social apenas foi avaliada a nível genérico – orientação para a comparação social, i.e., a propensão dos indivíduos para o envolvimento em comparações sociais. É importante que no futuro seja realizada uma avaliação mais fina e detalhada dos processos de comparação social dos pais e eventualmente dos filhos adolescentes, e respetivas implicações, incluindo a consideração das dimensões em que a comparação social é realizada (e.g., gravidade clínica da epilepsia, capacidade de *coping*); ou relativos à escolha de alvos de comparação social (e.g., crianças saudáveis, crianças com outras CCSP); ou do tipo/orientação das comparações sociais (e.g., ascendente, descendente, lateral); ou da interpretação da comparação social (identificação vs. contraste com o alvo da comparação social). Tal refinamento na análise dos processos de comparação social poderá revelar-se particularmente útil na compreensão da variabilidade dos resultados de adaptação das crianças com epilepsia e de seus pais, na eventual sinalização famílias em risco acrescido de dificuldades de adaptação, bem como na compreensão do impacto da incorporação de informação de cariz social comparativo nas intervenções desenvolvidas ou na identificação de pais mais capazes de beneficiar com a integração em associações de promoção/proteção dos direitos dos doentes com epilepsia.

Ainda relativamente à avaliação de variáveis de relevo, em face do amplo desenvolvimento registado a nível internacional no domínio dos instrumentos de avaliação da QdVRS específicas para a epilepsia, bem como a produção de versões reduzidas, de que são exemplos a *Quality of Life in Childhood Epilepsy Questionnaire* (QOLCE-55, Sabaz et al., 2000), versão *parent report*, o *Health related quality of life measure for children with epilepsy* (CHEQOL-

25, Ferro et al., 2017; Ronen et al., 2003b), com versões *parent and proxy report*, ou o *Quality of Life in Epilepsy Inventory for Adolescents (QOLIE-AD-48, Cramer et al., 1999)* será importante, no futuro, a realização da adaptação para o contexto Português de alguns destes instrumentos específicos de avaliação da QdVRS das crianças na epilepsia pediátrica. Comparativamente aos instrumentos genéricos, os instrumentos específicos de avaliação da QdVRS na epilepsia pediátrica têm-se revelado mais sensíveis para avaliar a experiência da epilepsia pediátrica e do tratamento (Y. Wu et al., 2014), e por isso, mais capazes de avaliar o impacto da epilepsia em particular.

Em contrapartida, importa reconhecer que o estudo das crianças e adolescentes com condições crónicas de saúde pediátricas, pelo risco acrescido para pior adaptação que apresentam (Drotar, 1997), pode contribuir para uma compreensão mais aprofundada dos processos desenvolvimentais normativos e elucidar componentes decisivos da adaptação que poderão não ser tipicamente evidentes em amostras normativas (Carona, 2013; Cicchetti, 2006). No caso concreto das famílias no contexto da epilepsia pediátrica, a doença “não é a totalidade da criança”, apenas um dos seus contextos de vida, cujas vivências vão interagir com todas as vivências da criança em casa, na escola, no grupo de pares, na família alargada e na comunidade. Neste sentido, a criança com epilepsia vive, como todas as outras crianças, um processo de adaptação e desenvolvimento multideterminado, e só nem alguns períodos e situações é que a epilepsia adquirirá centralidade (Barros, 2003). Assim, ao nível da investigação, se por um lado se revela importante a utilização de medidas que sejam sensíveis às especificidades impostas por uma determinada condição crónica de saúde, importa igualmente atender ao panorama mais vasto de desafios e dificuldades que estas crianças e suas famílias estão sujeitas, e que em muito ultrapassam os diretamente relacionados com a doença, sendo por isso importante considerar os resultados individuais genéricos e normativos ao nível da investigação, reconhecendo e promovendo as semelhanças com a população geral, ao nível da prática clínica (Knafl & Gilliss, 2002), aspeto que abordaremos no ponto seguinte.

No futuro, poderá ser importante a incorporação de desenhos mistos, combinado metodologias quantitativas e qualitativas, no sentido de compreender melhor, por exemplo a forma como o estigma em relação à epilepsia é influenciado ou influência a coesão familiar; ou de que forma os processos de comparação social estão patentes na vida das famílias no contexto da epilepsia pediátrica, designadamente nas vivências dos seus membros individuais, respetivos impactos ao nível da adaptação e interações com o estigma. Em face dos resultados de estudos recentes em torno do estigma em relação à doença dos filhos na QdV nos respetivos cuidadores familiares (Elafros et al., 2013; H. Liu et al., 2013), e dos resultados do nosso Estudo IV ao nível do impacto do estigma nos indicadores de adaptação dos pais, parece-nos importante a exploração, em estudos futuros, do conceito de estigma de cortesia entre os cuidadores

familiares de crianças com epilepsia. Atendendo às funções que os rituais familiares têm especificamente para as famílias com condições crónicas de saúde pediátricas, designadamente ao proporcionarem à família um sentido de normalidade e ao constituírem uma oportunidade de trocas afetiva e reforço de laços (Crespo et al., 2013), e dado o carácter promissor que os rituais familiares revelaram ter na adaptação individual dos pais no contexto específico da epilepsia pediátrica, no nosso Estudo V, seria importante no futuro investigar como é que as famílias incorporam o lidar com uma doença como a epilepsia – marcada pela imprevisibilidade e pelo estigma- em alturas de celebrações de aniversários, tradições e épocas festivas em que a família se encontra mais exposta a elementos exteriores ao seu núcleo.

A nossa investigação deu particular destaque à análise da influência das variáveis familiares nos resultados individuais de adaptação das crianças com epilepsia e respetivos pais. No entanto, e como ficou patente no artigo de revisão de literatura (Estudo I) e na discussão dos resultados dos estudos empíricos desenvolvidos, não pode perder-se de vista uma abordagem multinível mais alargada, com a consideração das influências e interações com outros níveis de sistemas (e.g., mesossistema família-escola, família- sistema de saúde; macrosistema), e respetiva análise do seu capital de apoio ou perturbação, crucial para a compreensão da variabilidade dos resultados e processos de adaptação das crianças com epilepsia e seus pais. De particular relevância para exploração em estudos futuros parecem-nos as relações da família com o sistema escolar em crianças com epilepsia com dificuldades de aprendizagem, comorbidade cuja prevalência ultrapassa os 50% dos casos¹⁵ (Lopes, Simões, et al., 2013).

No mesmo nível mesossistémico consideramos pertinente a análise mais aprofundada das relações da família com sistema de saúde e seus profissionais, atendendo ao modelo de cuidados centrados na família preconizado nas recomendações de funcionamento dos serviços de saúde na área da epilepsia (Ferro, 2014; Institute of medicine, 2012) e cuja implementação prática se revela ainda inconsistente e permeada por várias dificuldades (Guilfoyle, Follansbee-Junger, & Modi, 2013; Weyand, Wagner, & Brooks, 2016). É ainda importante identificar pontos fortes e dificuldades nas relações; descodificar expectativas mútuas, barreiras e facilitadores, bem como averiguar eventuais modelos de comunicação entre sistema de saúde e sistema escolar mais consistentes e eficazes na promoção da adaptação da criança com epilepsia e a sua família. Tal exigiria a adoção de metodologias predominantemente qualitativas, dado o carácter pouco

¹⁵ A este nível, considerámos relevante destacar o contributo que o Projeto Escola Amiga, desenvolvido e dinamizado pela EPI-APFAPE - Associação Portuguesa de Familiares, Amigos e Pessoas com Epilepsia, tem dado ao nível da formação e sensibilização sobre a epilepsia, em escolas de vários níveis de ensino, e que visa quatro grandes objetivos: reduzir o impacto psicossocial da doença, potenciando a integração do aluno com epilepsia na escola; promover o conhecimento sobre a epilepsia e formas de atuação em caso de crise; melhorar a comunicação e confiança mútua entre a família e os profissionais de educação; melhorar a articulação entre a escola e as entidades que prestam apoio médico, psicológico e social ao aluno com epilepsia (EPI, 2017, setembro, 2010).

explorado dos temas em questão, conscientes ainda que a nossa capacidade para teorizar sobre a realidade é muito superior à nossa capacidade para a medir (Holmbeck & Devine, 2011).

5 Implicações para a intervenção clínica

Neste ponto, começamos por enquadrar e abordar o papel dos psicólogos nos serviços de atendimento especializados na área da epilepsia pediátrica, para, num segundo momento discutirmos as implicações dos resultados da presente investigação para a estruturação de intervenções clínicas na área específica da adaptação das crianças com epilepsia e seus pais.

5.1 Papel dos psicólogos nos serviços de atendimento especializados na epilepsia pediátrica

De acordo com o relatório redigido pela *Epilepsy Advocacy Europe Task Force* em 2015, intitulado *Epilepsy priorities in Europe: A report of the ILAE-IBE* (Baulac et al., 2015), entre as prioridades de atuação na área da epilepsia pediátrica contam-se a melhoria dos padrões de prestação de cuidados de saúde na epilepsia, assegurando acesso dos doentes a centros especializados compostos por equipas multidisciplinares, melhoria do apoio ao nível das comorbilidades da epilepsia, com ênfase particular na saúde mental e a redução do estigma da epilepsia. Também o relatório americano *Epilepsy across the spectrum*, elaborado pelo *Institute of Medicine* (2012) destaca como desafios na área, a implementação efetiva de um modelo de prestação de cuidados saúde compreensivos e de cuidados centrados na família, nas unidades especializadas de atendimento a doentes com epilepsia, capazes de atender às múltiplas dimensões de necessidades que os doentes possam ter. Tal requiere a existência de equipas multidisciplinares que trabalhem de modo colaborativo e integrado.

Ao nível das atuações diretas com as famílias, os psicólogos podem contribuir para ajudar as crianças e suas famílias a lidar com a epilepsia e respetivos tratamentos, melhorando a auto-gestão da doença e a adesão ao tratamento; promover a adoção de comportamentos saudáveis, prevenindo ou intervindo em situação de não adesão, problema particularmente evidente entre a população adolescente (Modi, Rausch, et al., 2011); contribuir, através de psicoeducação, para informar os pais da necessidade de prevenirem os *triggers* de alteração de humor ou comportamento; ajudar as crianças e pais a lidar de forma mais proactiva com os efeitos secundários dos fármacos anti-epiléticos, otimizando a tolerabilidade aos mesmos e melhorando deste modo, a QdV da criança (Modi et al., 2017; Weyand et al., 2016); implementar intervenções baseadas na evidência, com vista a lidar com as comorbilidades comportamentais, emocionais, e de aprendizagem da epilepsia (Guilfoyle et al., 2013; Guilfoyle, Wagner, Smith, & Modi, 2012); ou explorar, junto da família, eventuais barreiras no acesso aos cuidados de saúde e educativos fundamentais para a otimização da QdV destas crianças (Ott et al., 2003).

No âmbito da colaboração com as equipas multidisciplinares de atendimento, o papel dos psicólogos pode incluir a sensibilização dos profissionais de saúde e de educação que prestam cuidados às famílias acerca de algumas especificidades do processo de adaptação das

famílias no contexto da epilepsia pediátrica. Este processo pode implicar uma co-reflexão sobre o previsível impacto que diferentes estratégias de atuação ou de articulação entre serviços na adaptação das crianças e seus familiares (Guilfoyle et al., 2017; Modi et al., 2017). Mais concretamente, as necessidades de informação em relação à doença, opções de tratamento disponíveis, a gestão diária da condição de saúde, os receios em torno do estigma, devem constituir um foco permanente de atenção por parte dos profissionais de saúde, ao permitirem a recuperação de algum controlo sobre a situação, e de planeamento em relação ao futuro, como sugerem os nossos resultados. Atendendo ao risco acrescido para fragilidades ao nível da competência parental evidenciado por pais de crianças com epilepsia (Pinquart, 2013), é importante que os psicólogos sensibilizem os restantes profissionais para a importância de proporcionem condições em prol do envolvimento dos pais de crianças com epilepsia, nas tomadas de decisão clínica, ou nas soluções de encaminhamento a efetuar para que os pais não sintam o seu papel parental diminuído. A equipa de prestação de cuidados de saúde deve igualmente estar atenta à reação parental ao diagnóstico de epilepsia, e proporcionarem a ajuda necessária no sentido de clarificarem os previsíveis impactos, mesmo depois de passado o período de crise associado ao confronto inicial com o diagnóstico, de modo a ajudar a aliviar o peso sobre a família. O desenvolvimento de atuações passíveis de melhorar a comunicação entre o prestador de cuidados de saúde e o doente e sua família, pela facilitação de colaborações interdisciplinares ou pela promoção de colaborações com a escola, crucial no caso das crianças que evidenciam dificuldades de aprendizagem (e.g., questão das referenciações para a educação especial), constitui uma área em que os psicólogos poderão dar um importante contributo.

Na atualidade, o número de psicólogos afetos às unidades de atendimento, por limitações de financiamento destes profissionais e das suas intervenções, continua muito reduzido, aspeto que dificulta as possibilidades e formato de acompanhamento das famílias a carecer de acompanhamento, e o desenvolvimento de atuações colaborativas com a equipa multidisciplinar que integram (Weyand et al., 2016). Estudos anteriores revelam que o contributo dos psicólogos nestes serviços tem sido predominantemente pautado pela realização de avaliações neuropsicológicas e identificação de défices neurocognitivos (Modi et al., 2017), o que constitui uma abrangência manifestamente insuficiente face às necessidades psicossociais identificadas nesta população. Adicionalmente, apesar de existirem intervenções psicossociais baseadas na evidência desenvolvidas especificamente para famílias com crianças com epilepsia, designadamente na promoção de competências de *coping* para lidar com os desafios adicionais impostos pela epilepsia (Shore et al., 2008; Wagner et al., 2017), ou para lidar com os problemas emocionais e sociais (Carbone, Plegue, Barnes, & Shellhaas, 2014; Wagner, Smith, Ferguson, van Bakergem, & Hrisko, 2010; Weyand et al., 2016) na realidade, por limitações do serviço, nem sempre estas intervenções estão disponíveis em tempo útil. No caso das intervenções em grupo

registram-se dificuldades no recrutamento das famílias e posteriormente de comparência das famílias a sessões presenciais (Guilfoyle et al., 2017).

Em face da necessidade de alocar de forma eficiente os recursos disponíveis ao nível dos serviços de saúde para doentes com epilepsia, a identificação das crianças e famílias em risco acrescido para dificuldades de adaptação atuais ou futuras, constituiu uma necessidade incontornável na intervenção (Guilfoyle et al., 2017). Pelo contacto privilegiado que têm com as crianças e pais, os neuropediatras e as equipas de enfermagem podem ter um papel relevante na triagem, sinalização e encaminhamento de famílias com dificuldades continuadas de adaptação e que mais poderão beneficiar de intervenção psicológica.

Investigações anteriores revelam que com frequência, os encaminhamentos para psicólogos acontecem em situações de crise, ou seja, em resposta a problemas agudos que estão a comprometer a gestão da epilepsia (Wagner & Smith, 2007). Importa refletir sobre as limitações deste modelo organizativo nas possibilidades de se oferecerem intervenções preventivas promotoras da adaptação e de se identificarem dificuldades subclínicas antes destas terem um impacto mais significativo no funcionamento diário e no lidar com a doença. A realização de *screenings* regulares pelos serviços de Psicologia permitiria uma abordagem proactiva de promoção de saúde, atenta às necessidades destas crianças e suas famílias, passível de ajudar na identificação precoce de dificuldades psicológicas que emergem quando os desafios específicos relacionados com a epilepsia têm lugar (e.g., novas crises, alterações de medicação, dificuldades na adesão ao tratamento, dificuldades neurocognitivas secundárias à introdução dos fármacos antiepiléticos; alterações emocionais e comportamentais; dificuldades de aprendizagem), ou na triagem de doentes a requerer serviços adicionais tais como terapia familiar, avaliação neuropsicológica ou encaminhamento para serviços de psiquiatria (Guilfoyle et al., 2015; Guilfoyle et al., 2012).

5.2 Novos caminhos para as intervenções com as famílias no contexto da epilepsia pediátrica

Para desenvolver intervenções úteis para esta população precisamos de nos afastar do modelo orientado para a patologia e para o défice (Austin & Caplan, 2007). O modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak et al., 2009) oferece uma estrutura útil não só para a compreensão da adaptação, mas também para orientar intervenções que promovam as competências das famílias e que permitam antecipar a interferência de eventuais fatores de risco ou vulnerabilidade para a (in)adaptação (Barakat et al., 2003; Mullins et al., 2015). Os resultados da presente investigação, designadamente, a identificação de fatores relevantes para a adaptação de pais e filhos, e os respetivos mecanismos de influência contribuíram para a definição de alvos preferenciais de intervenção e para refletir sobre linhas orientadoras quer para o planeamento

de atuações preventivas, quer para a estruturação de programas de intervenção, no sentido de potenciar os recursos familiares no contexto não normativo da epilepsia pediátrica. A reflexão acerca dos resultados leva-nos a apontar implicações para a atuação do psicólogo tanto ao nível do trabalho com pais, quer com as equipas multidisciplinares de atendimento.

Relativamente às intervenções clínicas com as famílias no contexto da epilepsia pediátrica, os nossos resultados sugerem que o desenvolvimento de atuações promotoras de dimensões positivas do funcionamento familiar (coesão familiar, rituais familiares) é passível, por si mesma, de contribuir para melhorias quer na adaptação de crianças (Estudo III, IV, VI), quer dos seus pais (Estudos III, IV, V), quer indiretamente, por diminuir as perceções de estigma em relação à epilepsia (estudo IV, VI), quer pela promoção de um sentido de competência (estudo V) e mutualidade parental (estudo III). Os nossos resultados confirmam e destacam a importância de dirigir esforços recorrentes de avaliação e intervenção na área do funcionamento familiar global, principalmente junto das famílias crianças e pais cuidadores que evidenciam níveis inferiores de adaptação ou maior perceção do estigma. O foco nos recursos e forças familiares normativas, como a coesão familiar ou o significado atribuído aos rituais familiares viabiliza o desenvolvimento de intervenções que sejam alicerçadas em competências e recursos já presentes na família (Luthar & Cicchetti, 2000). Uma família resiliente é em simultâneo um resultado de uma adaptação bem-sucedida a uma CCSP, e uma causa para o desenvolvimento psicossocial ou resiliência da criança e seus familiares (Luthar & Cicchetti, 2000; Patterson, 1991).

Relativamente à coesão familiar, os resultados dos presentes estudos (III e IV) sugerem que crianças e pais pertencentes a famílias menos coesas poderão estar em risco acrescido para o estigma mais elevado e pior QDVRS, e devem ser alvos preferenciais de rastreio de dificuldades de adaptação. Promover um maior envolvimento e mutualidade parental e um *coping* mais efetivo com as exigências impostas pela epilepsia, bem como de um sentido de pertença e apoio mútuo entre membros da família, e onde a epilepsia pediátrica não seja percebida como o centro da vida familiar, pode contribuir para níveis superiores de adaptação no contexto da adversidade imposta por uma condição crónica de saúde pediátrica, no geral, como especificamente na epilepsia pediátrica.

Adicionalmente, levar as famílias com uma criança com epilepsia a reconhecer, e/ou desenvolver rituais familiares significativos, poderá ajudá-los a reduzir sintomas de perturbação emocional e a melhorar a QdV dos pais, por via do incremento do sentido de satisfação e eficácia parental (S. Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2018). Os rituais familiares têm a vantagem de serem facilmente reconhecidos e conversados com a família, e podem ser intencionalmente (re)criados ou transformados no sentido de irem ao encontro de necessidades específicas no contexto da gestão familiar da epilepsia. Para os pais, considerados os “*arquitetos da família*”

(Satir, 1983), os rituais familiares podem ser considerados ocasiões privilegiadas de criação de diálogo conjunto; para monitorizar e proporcionar suporte emocional à criança; para supervisionar a toma diária da medicação ou o envolvimento em atividades. Intervenções dirigidas à promoção da vivência em família de rituais familiares significativos são passíveis de incrementar os níveis de coesão e comunicação familiar, e de acarretar, por acréscimo, um efeito positivo ao nível do ajustamento individual e parental (Fiese, 2007; Spagnola & Fiese, 2007). Discutir com as famílias o significado que atribuem a rituais familiares específicos e identificar mudanças na forma ou frequência com que são vividos na família desde o confronto com o diagnóstico da epilepsia, podem ser oportunidades importantes para fomentar a competência parental. Para além disso, a realização de rituais familiares pode ajudar a recuperar o sentimento de normalidade e continuidade na família, apesar da perturbação imposta pelas circunstâncias não-normativas decorrentes da presença de uma CCSP como a epilepsia, na família (Crespo et al., 2013; Spagnola & Fiese, 2007). Focar as intervenções naquilo que as famílias fazem naturalmente e reconhecem como seu poderá constituir um caminho favorável no sentido de ajudar aqueles que estão em risco acrescido de pior adaptação.

Em relação ao estigma os resultados dos estudos desenvolvidos (IV, VI) sugerem que mesmo que os pais ou as crianças não refiram abertamente preocupações em torno do estigma, os clínicos deverão regularmente questionar as famílias sobre este assunto, e promover a discussão aberta do tema. Em face das influências que pais podem exercer nos filhos ao nível da sua perceção sobre a qualidade do funcionamento familiar, atestadas no Estudo IV, a discussão em torno do tema do estigma na epilepsia deve, sempre que possível, incluir pais e filhos em conjunto, nas intervenções. Ajudar as famílias a refletir sobre as vantagens e inconvenientes relacionados com o facto de falarem sobre a epilepsia, quer dentro da família, quer com elementos externos (e.g., família alargada, amigos, elementos-chave do sistema escolar), revela-se fundamental. Deve também ser explicada a diferença entre a perceção de estigma e episódios concretos de estigmatização, alertando para possíveis implicações a longo-prazo relacionadas com a experiência do estigma, proporcionar aconselhamento preventivo de modo a ajudar a famílias a lidarem de forma construtiva com as crises das crianças e o que fazer no caso de serem confrontados com situações concretas de estigmatização (A. Benson et al., 2015; Lambert et al., 2014).

Os resultados do Estudo VI apelam para a importância de atender à orientação para a comparação social dos pais, e percebê-la como uma variável individual passível de influenciar as suas atitudes e comportamentos em relação à criança com epilepsia e ao respetivo tratamento. Este resultado revela-se de particular importância dado que, nos últimos anos, tem-se registado um interesse crescente pelo desenvolvimento de programas psicoeducativos para famílias com filhos com epilepsia, bem como de grupos de ajuda-mútua integrados por doentes e familiares

(Shore et al., 2008; Wagner et al., 2017). Se por um lado, por via da disponibilização de informação ou da troca de experiências, medos, preocupações entre participantes, a participação nestes grupos pode acarretar benefícios ao nível dos conhecimentos sobre a doenças, das estratégias de *coping* adaptativas, percepção de suporte social (Bennenbroek et al., 2002; Buunk et al., 2012), por outro pode potenciar eventuais riscos, uma vez que a participação num grupo de doentes e familiares confronta as pessoas com informação de cariz comparativo passível de gerar dificuldades para pais com elevada orientação para a comparação social (Hodges & Dibb, 2010; Tennen et al., 2000). Os nossos resultados sugerem que estas pessoas poderão precisar de ajuda no sentido de utilizarem a informação social comparativa com que são confrontados, ou que pesquisam de modo consciente, de forma mais construtiva (Bennenbroek et al., 2002; Dibb & Yardley, 2006). Pais com uma elevada orientação para a comparação social poderão sentir elevado pessimismo se acreditarem que o seu filho/a com epilepsia nunca será capaz de alcançar um determinado nível de ajustamento face à doença, comparativamente a alguém que é percebido como mais eficaz e em que o impacto da epilepsia na sua vida em geral é percebido como mínimo; ou, em contrapartida, sentirem-se ansiosos perante a possibilidade dos seus filhos poderem vir um dia a ter uma experiência tão negativa como alguém que no presente vive uma situação mais grave do que a deles (Blanchard et al., 1999; Hodges & Dibb, 2010). Dada a inevitabilidade dos processos de comparação social nos contextos de saúde, os profissionais de saúde enfrentam o desafio de incorporarem informação comparativa nas suas intervenções, bem como no desenvolvimento de materiais de apoio (folhetos, páginas web) passível de facilitar a ocorrência de comparações adaptativas para os doentes e respetivos familiares (Arigo et al., 2012; Tennen et al., 2000). Particular atenção deve ser dada ao tipo de informação comparativa que melhor se ajusta às necessidades e preferências das famílias (e.g., focada na resolução do problema vs. focada nas emoções). Estudos prévios com doentes com outras condições de saúde sugerem que quando se proporciona às famílias informação comparativa, a informação focada na resolução do problema parece ser a mais eficaz para aqueles com elevada orientação para a comparação social; ao passo que informação comparativa focada nos sentimentos/experiência emocional da doença e tratamento parece produzir melhores resultados em termos de QdV junto daqueles com orientação para a comparação social mais baixa (Buunk et al., 2012). Poderá ser relevante a integração de componentes dirigidas às comparações sociais negativas nas intervenções psicossociais a realizar. O recurso ao INCOM, instrumento cuja validação para Portugal foi realizada no âmbito do presente projecto, constituindo um instrumento de rápida aplicação e cotação, pode fornecer pistas importantes para a identificação dos pais mais propensos e sensíveis ao impacto da informação comparativa.

No global, os resultados da presente investigação apoiam a importância da adoção de modelos de prestação de cuidados de saúde centrados no doente e na família. Tal modelo de

prestação de cuidados de saúde funda-se na compreensão de que a família da criança constitui a sua principal fonte de apoio e força (Crespo et al., 2016; Melamed, 2002). Segundo Walsh (1996), reduzir o stress familiar e reforçar as competências protetoras das famílias são objetivos de intervenção indissociáveis. As crianças e suas famílias constituem parceiros incontornáveis da equipa de saúde, sendo que família é frequentemente o mediador mais imediato e efetivo para a mudança na criança (Barros, 2003). Caso o formato familiar não for possível ou desejável, atuar ao nível das perceções individuais das relações familiares poderá revelar-se uma maneira efetiva de promover quer a adaptação individual, quer a adaptação da família na sua globalidade, atendendo à interdependência entre elementos da família. De acordo com a propriedade sistémica da totalidade, intervenções com um dos elementos da família podem contribuir para a mudança no todo familiar. E tal como as famílias são idiossincráticas e criativas, cabe às intervenções o desafio de também o serem.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

Referências bibliográficas

Abiodun, O. Adewuya. (2006). Parental psychopathology and self-rated quality of life in adolescents with epilepsy in Nigeria. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 48(7), 600-603. doi:10.1017/S0012162206001253

Affleck, G., Tennen, H., Pfeiffer, C., Fifield, J., & Rowe, J. (1987). Downward comparison and coping with serious medical problems. *American Journal of Orthopsychiatry*, 57(4), 570-578. doi:10.1111/j.1939-0025.1987.tb03572.x

Alarcão, M. (2000). *(Des)Equilíbrios familiares*. Coimbra: Quarteto Editora.

Aldenkamp, A. P., Weber, B., Overweg-Plandsoen, W. C., Reijs, R., & van Mil, S. (2005). Educational underachievement in children with epilepsy: a model to predict the effects of epilepsy on educational achievement. *Journal of child neurology*, 20(3), 175-180. doi:10.1177/08830738050200030101

Alderfer, M., Fiese, B., Gold, J. I., Cutuli, J. J., Holmbeck, G. N., Goldbeck, L., . . . Patterson, J. (2008). Evidence-based assessment in pediatric psychology: family measures. *Journal of pediatric psychology*, 33(9), 1046-1061. doi:10.1093/jpepsy/jsm083

Alderfer, M., & Rourke, M.T. (2010). Family psychology in the context of pediatric medical conditions. In J. Bray & M. Staton (Eds.), *Handbook of Family Psychology* (pp. 527-538): Blackwell Publishing Ltd.

Almiro, P.A., & Simões, M.R. . (2014). Questionário de Personalidade de Eysenck — Forma Revista (EPQ-R). In L.S. Almeida, M.R. Simões, & M.M. Gonçalves (Eds.), *Instrumentos e contextos de avaliação psicológica*. (Vol. II, pp. 211–229). Coimbra: Almedina.

Alves, D. (2017). Combater os preconceitos existentes sobre a epilepsia *Vida Saudável* (pp. 3-4). Lisboa: Bial.

American Psychological Association. (2013). Ethical Principles of Psychologists and Code of Conduct. In Gerald P. Koocher, John C. Norcross, Beverly A. Greene, Gerald P. Koocher, John C. Norcross, & Beverly A. Greene (Eds.), *Psychologists' desk reference*. (pp. 529-550). New York, NY, US: Oxford University Press.

American Psychological Association. (2016). Ethical Principles of Psychologists and Code of Conduct. In A. E. Kazdin (Ed.), *Methodological issues and strategies in clinical research* (4th ed., pp. 495-512). Washington, DC, US: American Psychological Association.

Annegers, J. F., Hauser, W. F., Lee, J. R., & Rocca, W. A. (1995). Incidence of acute symptomatic seizures in Rochester, Minnesota, 1935-1984. *Epilepsia*, 36(4)(0013-9580), 327-333. doi:10.1111/j.1528-1157.1995.tb01005.x

Antunes, A. F., Bárbara, C.R., & Gomes, E.M. (2013). *Programa Nacional para as Doenças Respiratórias: 2012-2016*. (2ª ed.). Lisboa: Direção Geral de Saúde.

- Arbuckle, J. . (2012). *Amos 21.0 User's Guide*. Chicago: IBM Corp.
- Arigo, D., Suls, J. M., & Smyth, J. M. (2012). Social comparisons and chronic illness: research synthesis and clinical implications. *Health Psychology Review*, 1-61. doi:10.1080/17437199.2011.634572
- Assembleia da República. (2008, janeiro, 7). Lei n.o 3/2008 de 7 de janeiro *Diário da República, 1.a série*, 154-164.
- Austin, J. K. (1990). Childhood Epilepsy and Asthma: Family Strengths Associated with Child Adaptation. <https://files.eric.ed.gov/fulltext/ED331248.pdf>
- Austin, J. K. (1996). A model of family adaptation to new-onset childhood epilepsy. *Journal of neuroscience nursing*, 28(2), 82-92.
- Austin, J. K., & Caplan, R. (2007). Behavioral and psychiatric comorbidities in pediatric epilepsy: toward an integrative model. *Epilepsia*, 48(9), 1639-1651. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01154.x
- Austin, J. K., Dunn, D. W., & Huster, G. A. (2000). Childhood epilepsy and asthma: changes in behavior problems related to gender and change in condition severity. *Epilepsia*, 41(5), 615-623. doi:10.1111/j.1528-1157.2000.tb00217.x
- Austin, J. K., Dunn, D. W., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2004). Behavioral issues involving children and adolescents with epilepsy and the impact of their families: recent research data. *Epilepsy Behav*, 5 Suppl 3, 33-41. doi:10.1016/j.yebeh.2004.06.014
- Austin, J. K., Dunn, D. W., Perkins, S. M., & Shen, J. (2006). Youth With Epilepsy: Development of a Model of Children's Attitudes Toward Their Condition. *Child Health Care*, 35(2), 123-140. doi:10.1207/s15326888chc3502_2
- Austin, J. K., Haber, L. C., Dunn, D. W., Shore, C. P., Johnson, C. S., & Perkins, S. M. (2015). Children with new onset seizures: A prospective study of parent variables, child behavior problems, and seizure occurrence. *Epilepsy & behavior*, 53, 73-77. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.019
- Austin, J. K., Hesdorffer, D. C., Liverman, C. T., Schultz, A. M., & Testimony, Group. (2012). Testimonies submitted for the Institute of Medicine report: epilepsy across the spectrum: promoting health and understanding. *Epilepsy & behavior*, 25(4), 634-661. doi:10.1016/j.yebeh.2012.10.003
- Austin, J. K., Huberty, Thomas J., Huster, Gertrude A., & Dunn, David W. (1998). Academic achievement in children with epilepsy or asthma. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 40(4), 248-255. doi:10.1111/j.1469-8749.1998.tb15457.x
- Austin, J. K., Huster, G., Dunn, D. W., & Risinger, M. W. (1996). Adolescents with active or inactive epilepsy or asthma: a comparison of quality of life. *Epilepsia*, 37(12), 1228-1238.

Austin, J. K., MacLeod, J., Dunn, D. W., Shen, J., & Perkins, S. M. (2004). Measuring stigma in children with epilepsy and their parents: instrument development and testing. *Epilepsy & behavior*, 5(4), 472-482. doi:10.1016/j.yebeh.2004.04.008

Austin, J. K., Perkins, S. M., & Dunn, D. W. (2014). A Model for Internalized Stigma in Children and Adolescents with Epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 36, 74-79. doi:10.1016/j.yebeh.2014.04.020

Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2010). Self-esteem and symptoms of depression in children with seizures: relationships with neuropsychological functioning and family variables over time. *Epilepsia*, 51(10), 2074-2083. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02575.x

Austin, J. K., Perkins, S. M., Johnson, C. S., Fastenau, P. S., Byars, A. W., deGrauw, T. J., & Dunn, D. W. (2011). Behavior problems in children at time of first recognized seizure and changes over the following 3 years. *Epilepsy & behavior*, 21(4), 373-381. doi:10.1016/j.yebeh.2011.05.028

Aviram, I., Atzaba-Poria, N., Pike, A., Meiri, G., & Yerushalmi, B. (2015). Mealtime dynamics in child feeding disorder: The role of child temperament, parental sense of competence, and paternal involvement. *Journal of pediatric psychology*, 40(1), 45-54. doi:10.1093/jpepsy/jsu095

Aylward, B. S., & Lee, J. L. (2017). Historical developments and trends in Pediatric Psychology. In M. C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (Fifth ed., pp. 3-13). New York, NY, USA: The Guilford Press.

Aytch, L. S., Hammond, R., & White, C. (2001). Seizures in infants and young children: an exploratory study of family experiences and needs for information and support. *Journal of neuroscience nursing*, 33(5), 278-285.

Baca, Christine B., Vickrey, Barbara G., Vassar, Stefanie D., & Berg, Anne T. (2012). Seizure recency and quality of life in adolescents with childhood-onset epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 23(1), 47-51. doi:10.1016/j.yebeh.2011.10.010

Bai, L., & Han, Z. R. (2016). Emotion Dysregulation Mediates Relations Between Chinese Parents' Histories of Childhood Emotional Abuse and Parenting Stress: A Dyadic Data Analysis. *Parenting: Science & Practice*, 16(3), 187-205. doi:10.1080/15295192.2016.1158602

Baker, G. A., Brooks, J., Buck, D., & Jacoby, A. (2000). The stigma of epilepsy: a European perspective. *Epilepsia*, 41(1), 98-104.

Baker, G. A., Hargis, Eric, Hsieh, Marshall, Mo-Song, Mounfield, Hilary, Arzimanoglou, Alexis, . . . Lund, Susanne. (2008). Perceived impact of epilepsy in teenagers and young adults: An international survey. *Epilepsy & behavior*, 12(3), 395-401. doi:10.1016/j.yebeh.2007.11.001

Bandura, A. (1995). Exercise of personal and collective efficacy in changing societies. In A. Bandura (Ed.), *Self-efficacy in changing societies* New York: Cambridge University Press.

Banerjee, P. N., & Hauser, W. A. (2008). Incidence and prevalence. In Timothy A. Pedley ; associate editors Jerome Engel Jr., Jean Aicardi ... [et al.] (Ed.), *Epilepsy : a comprehensive textbook* (2ª ed., pp. 12). Philadelphia: Wolters Kluwer/Lippincott Williams & Wilkins.

Barakat, L. P., & Alderfer, M. (2011). Introduction to Special Issue: Advancing the Science of Family Assessment in Pediatric Psychology. *Journal of pediatric psychology*, 36(5), 489-493. doi:10.1093/jpepsy/jsql110

Barakat, L. P., Kunin-Batson, A., & Kazak, A. (2003). Child Health Psychology. In I. B. Weiner, A. Nezu, C. Nezu, & P. A. Geller (Eds.), *Handbook of Psychology: Health Psychology* (1st ed., Vol. 9, pp. 439-464): Wiley, John & Sons, Incorporated.

Barber, B. K., & Buehler, C. (1996). Family Cohesion and Enmeshment: Different Constructs, Different Effects. *Journal of Marriage and the Family*, 58(2), 433-441.

Barros, L. (2003). *Psicologia Pediátrica, Perspectiva desenvolvimentista* (2ª ed.). Lisboa: Climepsi Editores.

Bateson, G. (1979). *Mind and nature: A necessary unity*. New York: Dutton.

Baulac, M., Boer, H., Elger, C., Glynn, M., Kalviainen, R., Little, A., . . . Ryvlin, P. (2015). Epilepsy priorities in Europe: A report of the ILAE- IBE Epilepsy Advocacy Europe Task Force. *Epilepsia (Series 4)*, 56(11), 1687-1695. doi:10.1111/epi.13201

Beghi, E., Carpio, Arturo, Forsgren, Lars, Hesdorffer, Dale C., Malmgren, Kristina, Sander, Josemir W., . . . Hauser, W. Allen. (2010). Recommendation for a definition of acute symptomatic seizure. *Epilepsia*, 51(4), 671-675. doi:10.1111/j.1528-1167.2009.02285.x

Beghi, E., Giussani, G., & Sander, J. W. (2015). The natural history and prognosis of epilepsy. *Epileptic Disorders*, 17(3), 243-253. doi:10.1684/epd.2015.0751

Belsky, J., & Jaffee, S. R. (2006). The multiple determinants of parenting. In Dante Cicchetti & Donald J. Cohen (Eds.), *Developmental psychopathology: Risk, disorder, and adaptation*. (pp. 38-85). Hoboken, NJ, US: John Wiley & Sons Inc.

Benavente-Aguilar, I., Morales-Blázquez, C., Rubio, E. A., & Rey, J. M. (2004). Quality of life of adolescents suffering from epilepsy living in the community. *Journal of Paediatrics & Child Health*, 40(3), 110-113. doi:10.1111/j.1440-1754.2004.00308.x

Bennenbroek, F. T. , Buunk, B. P., van der Zee, K. I., & Grol, B. (2002). Social comparison and patient information: what do cancer patients want? *Patient Education & Counseling*, 47(1), 5-12.

Benson, A., O'Toole, S., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2015). To tell or not to tell: A systematic review of the disclosure practices of children living with epilepsy and their parents. *Epilepsy & Behavior*

, 51, 73-95. doi:10.1016/j.yebeh.2015.07.013

Benson, A., O'Toole, S., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2016). The stigma experiences and perceptions of families living with epilepsy: Implications for epilepsy-related communication within and external to the family unit. *Patient Education & Counseling*, 99(9), 1473-1481. doi:10.1016/j.pec.2016.06.009

Benson, P.R. (2016). The longitudinal effects of network characteristics on the mental health of mothers of children with ASD: The mediating role of parent cognitions. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 46(5), 1699-1715. doi:10.1007/s10803-016-2699-3

Berg, A.T. (2011). Epilepsy, Cognition, and Behavior: The clinical picture. *Epilepsia*, 52(Suppl 1), 7-12. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02905.x

Berg, A.T., Berkovic, S. F., Brodie, M. J., Buchhalter, J., Cross, J. H., van Emde Boas, W., . . . Scheffer, I. E. (2010). Revised terminology and concepts for organization of seizures and epilepsies: report of the ILAE Commission on Classification and Terminology, 2005-2009. *Epilepsia*, 51(4), 676-685. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02522.x

Berg, A.T., Jallon, P.F., & Preux, P.M. (2013). The epidemiology of seizure disorders in infancy and childhood: definitions and classifications. In M. Lassonde and H.B. Sarnat O. Dulac (Ed.), *Handbook of Clinical Neurology* (Vol. 111, pp. 391-398): Elsevier P.V.

Berg, A.T., Loddenkemper, T. , & Baca, C. B. (2014). Diagnostic delays in children with early onset epilepsy: impact, reasons, and opportunities to improve care. *Epilepsia*, 55(1), 123-132. doi:10.1111/epi.12479

Berg, A.T., & Rychlik, K. (2015). The course of childhood-onset epilepsy over the first two decades: A prospective, longitudinal study. *Epilepsia (Series 4)*, 56(1), 40-48. doi:10.1111/epi.12862

Berg, A.T., Shinnar, S., Levy, S.R., Testa, F.M., Smith-Rapaport, S., Beckerman, B., & Ebrahimi, N. (2001). Two-year remission and subsequent relapse in children with newly diagnosed epilepsy. *Epilepsia*, 42(12), 1553-1562. doi:10.1046/j.1528-1157.2001.21101.x

Bethell, C. D., Read, D., Blumberg, S. J., & Newacheck, P. W. (2008). What is the prevalence of children with special health care needs? Toward an understanding of variations in findings and methods across three national surveys. *Maternal Child Health Journal*, 12(1), 1-14. doi:10.1007/s10995-007-0220-5

Blanchard, L. W., Blalock, S. J., DeVellis, R. F., DeVellis, B. M., & Johnson, M. R. (1999). Social Comparisons Among Mothers of Premature and Full-Term Infants. *Children's Health Care*, 28(4), 329-348.

Bodde, N. M. G., Lazeron, R. H. C., Wirken, J. M. A., van der Kruijs, S. J., Aldenkamp, A. P., & Boon, P. A. J. M. (2012). Patients with psychogenic non-epileptic seizures referred to a

tertiary epilepsy centre: Patient characteristics in relation to diagnostic delay. *Clinical Neurology & Neurosurgery*, 114(3), 217-222. doi:10.1016/j.clineuro.2011.10.019

Bolner, O. . (2012, March 29 – 31). *Effects of Perceived Stigma Amongst Parents of Children with Mitochondrial Disease*. Paper presented at the The National Conference On Undergraduate Research (NCUR), Ogden Utah

Brodtkorb, E. (2013). Common imitators of epilepsy. *Acta neurologica Scandinavica*, 127, 5-10. doi:10.1111/ane.12043

Brody, G.H., & Flor, D.L. (1997). Maternal psychological functioning, family processes, and child adjustment in rural, single-parent, African American families. *Developmental Psychology*, 33(6), 1000-1011. doi:10.1037/0012-1649.33.6.1000

Bronfenbrenner, U. (1979). *The Ecology of Human Development: Experiments by Nature and Design*. Cambridge, MA: Harvard University Press.

Bronfenbrenner, U. (1986). Ecology of the family as a context for human development: Research perspectives. *Developmental Psychology*, 22(6), 723-742. doi:10.1037/0012-1649.22.6.723

Bronfenbrenner, U., & Morris, P. A. (2006). The Bioecological Model of Human Development. In Richard M. Lerner & William Damon (Eds.), *Handbook of child psychology: Theoretical models of human development, Vol. 1, 6th ed.* (pp. 793-828). Hoboken, NJ, US: John Wiley & Sons Inc.

Buelow, J. M., McNelis, A., Shore, C. P., & Austin, J. K. (2006). Stressors of parents of children with epilepsy and intellectual disability. *Journal of neuroscience nursing*, 38(3), 147-154, 176.

Bullinger, M., Schmidt, S., Petersen, C., & Group, Disabkids. (2002). Assessing quality of life of children with chronic health conditions and disabilities: a European approach. *Int J Rehabil Res*, 25(3), 197-206.

Buunk, A. P., Belmonte, J., Peiró, J. M., Zurriaga, R., & Gibbons, F. X. (2005). Diferencias individuadas en la comparación social: Propiedades de la Escala Española de Orientación hacia la Comparación Social. *Revista Latinoamericana de Psicología*, 37(3), 561-579.

Buunk, A. P., Bennenbroek, F. T., Stiegelis, H. E., van den Bergh, A. C., Sanderman, R., & Hagedoorn, M. (2012). Follow-up effects of social comparison information on the quality of life of cancer patients: the moderating role of social comparison orientation. *Psychology and Health*, 27(6), 641-654. doi:10.1080/08870446.2011.613994

Buunk, A. P., & Gibbons, F. X. (2007). Social Comparison: The End of a Theory and the Emergence of a Field. *Organizational Behavior and Human Decision Processes*, 102(1), 3-21.

Buunk, A. P., Zurriaga, R., Gonzalez, P., Terol, C., & Roig, S. L. (2006). Targets and dimensions of social comparison among people with spinal cord injury and other health problems. *British Journal of Health Psychology*, 11(Pt 4), 677-693. doi:10.1348/135910705X81000

Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts, applications, and programming* (2nd ed.). New York, NY US: Routledge/Taylor & Francis Group.

Camfield, C., Breau, L., & Camfield, P. (2001). Impact of pediatric epilepsy on the family: a new scale for clinical and research use. *Epilepsia*, 42(1), 104-112. doi:10.1046/j.1528-1157.2001.081420.x

Camfield, C., Camfield, P., & Smith, Bruce. (2016). Poor versus rich children with epilepsy have the same clinical course and remission rates but a less favorable social outcome: A population-based study with 25 years of follow-up. *Epilepsia (Series 4)*, 57(11), 1826-1833. doi:10.1111/epi.13576

Camfield, P., & Camfield, C. (2002). Epileptic Syndromes in Childhood: Clinical Features, Outcomes, and Treatment. *Epilepsia*, 43, 27-32. doi:10.1046/j.1528-1157.43.s.3.3.x

Camfield, P., & Camfield, C. (2015). Incidence, prevalence and aetiology of seizures and epilepsy in children. *Epileptic Disorders*, 17(2)(1294-9361), 117-123. doi:10.1684/epd.2015.0736

Caplan, R. (2015). Parent Versus Child Informants: Who Do We Choose? *Epilepsy Currents*, 15(6), 330-332.

Carbone, L., Plegue, M., Barnes, Ashley, & Shellhaas, Renée. (2014). Improving the mental health of adolescents with epilepsy through a group cognitive behavioral therapy program. *Epilepsy & behavior*, 39, 130-134. doi:10.1016/j.yebeh.2014.07.024

Carlton-Ford, S., Miller, R., Brown, M., Nealeigh, N., & Jennings, P. (1995). Epilepsy and children's social and psychological adjustment. *Journal of Health and Social Behavior*, 36(3), 285-301. doi:10.2307/2137344

Carlton-Ford, S., Miller, R., Nealeigh, N., & Sanchez, N. (1997). The effects of perceived stigma and psychological over-control on the behavioural problems of children with epilepsy. *Seizure*, 6(5), 383-391.

Carona, C. (2013). *The Psychosocial Adaptation of Children and Adolescents with Cerebral Palsy and their Parents: A different matter or the matter of a difference?* (Doctoral Thesis), University of Coimbra, Coimbra.

Carona, C., Crespo, C., Silva, N., Lopes, A. F., Canavarro, M. C., & Bullinger, M. (2013). Examining a developmental approach to health-related quality of life assessment: Psychometric analysis of DISABKIDS generic module in a Portuguese sample. *Vulnerable Children and Youth Studies*, 8(3), 243-257. doi:10.1080/17450128.2012.736647

Carpay, J. A., Arts, W. F., Vermeulen, J., Stroink, H., Brouwer, O. F., Peters, A. C., . . . Aldenkamp, A. P. (1996). Parent-completed scales for measuring seizure severity and severity of

side-effects of antiepileptic drugs in childhood epilepsy: development and psychometric analysis. *Epilepsy Research*, 24(3), 173-181. doi:10.1016/0920-1211(96)00012-5

Carpay, J. A., Vermuelen, J., Stroink, H., Brouwer, O. F., Peters, A. C. B., Aldenkamp, A. P., . . . Arts, W. F. M. (1997). Seizure severity in children with epilepsy: A parent-completed scale compared with clinical data. *Epilepsia*, 38(3), 346-352. doi:10.1111/j.1528-1157.1997.tb01127.x

Carpenter, D.R., & Narsavage, G.L. (2004). One breath at a time: living with cystic fibrosis. *Journal of Pediatric Nursing*(19), 25-32.

Carr, D., Freedman, Vi. A., Cornman, Jennifer C., & Schwarz, Norbert. (2014). Happy Marriage, Happy Life? Marital Quality and Subjective Well-being in Later Life. *Journal of Marriage & Family*, 76(5), 930-948. doi:10.1111/jomf.12133

Carvalho-Homem, T. . (2014). *A eficácia de um programa de intervenção parental para pré-escolares: O programa Anos Incríveis*. (Tese de doutoramento), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Castro-Fonseca, A., Eysenck, S.B., & Simões, A. . (1991). Um estudo intercultural da personalidade: Comparação de adultos portugueses e ingleses no EPQ. . *Revista Portuguesa de Pedagogia*, 25, 187-203.

Chan, C. M., Zou, G., Wiebe, S., & Speechley, K. N. (2015). Global assessment of the severity of epilepsy (GASE) Scale in children: Validity, reliability, responsiveness. *Epilepsia (Series 4)*, 56(12), 1950-1956. doi:10.1111/epi.13216

Chapieski, L., Brewer, V., Evankovich, K., Culhane-Shelburne, K., Zelman, K., & Alexander, A. (2005). Adaptive functioning in children with seizures: impact of maternal anxiety about epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 7(2), 246-252. doi:10.1016/j.yebeh.2005.05.002

Chaves, J. . (2016). Aspetos gerais do tratamento In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: Conceitos, diagnóstico e tratamento* (pp. 171-177). Lisboa: Lidel - Edições Técnicas, Lda.

Cheung, C., & Wirrell, E. (2006). Adolescents' perception of epilepsy compared with other chronic diseases: "through a teenager's eyes". *Journal of child neurology*, 21(3), 214-222. doi:10.2310/7010.2006.00053

Chiou, H. H., & Hsieh, L. P. (2008). Comparative Study of Children's Self-Concepts and Parenting Stress Between Families of Children With Epilepsy and Asthma. *Journal of Nursing Research*, 16(1), 65-74.

Chong, Lauren, Jamieson, Nathan J., Gill, Deepak, Singh-Grewal, Davinder, Craig, Jonathan C., Ju, Angela, . . . Tong, Allison allison tong sydney edu au. (2016). Children's Experiences of Epilepsy: A Systematic Review of Qualitative Studies. *Pediatrics*, 138(3), 1-18. doi:10.1542/peds.2016-0658

- Cianchetti, C., Messina, P., Pupillo, E., Crichiutti, G., Baglietto, M. G., Veggiotti, P., . . . Beghi, E. (2015). The perceived burden of epilepsy: Impact on the quality of life of children and adolescents and their families. *Seizure*, *24*, 2493-2101. doi:10.1016/j.seizure.2014.09.003
- Cicchetti, D. . (2006). Development and Psychopathology. In D. Cicchetti & D. Cohen (Eds.), *Developmental psychopathology* (Vol. Volume 1: Theory and method pp. 1-23). New York: Wiley.
- Cohen, M. S. (1999). Families coping with childhood chronic illness: A research review. *Families, Systems & Health*, *17*(2), 149-164. doi:10.1037/h0089879
- Coleman, P.K., & Karraker, K.H. (1998). Self-efficacy and parenting quality: Findings and future applications. *Developmental Review*, *18*(1), 47-85. doi:10.1006/drev.1997.0448
- Coleman, P.K., & Karraker, K.H. (2000). Parenting self-efficacy among mothers of school-age children: Conceptualization, measurement, and correlates. *Family Relations: An Interdisciplinary Journal of Applied Family Studies*, *49*(1), 13-24. doi:10.1111/j.1741-3729.2000.00013.x
- Collins, Sarah. (2011). The psychosocial effect of epilepsy on adolescents and young adults. *Nursing Standard*, *25*(43), 48-56.
- Commission on Classification and Terminology of the International League Against Epilepsy. (1981). Proposal for revised clinical and electroencephalographic classification of epileptic seizures. . *Epilepsia*, *22*(4), 489-501. doi:10.1111/j.1528-1157.1981.tb06159.x
- Commission on Classification and Terminology of the International League Against Epilepsy. (1989). Proposal for revised classification of epilepsies and epileptic syndromes *Epilepsia*, *30*, 389-399. doi:10.1111/j.1528-1157.1989.tb05316.x
- Cook, William L., & Kenny, D. A. (2005). The Actor-Partner Interdependence Model: A model of bidirectional effects in developmental studies. *International Journal of Behavioral Development*, *29*(2), 101-109. doi:10.1080/01650250444000405
- Cramer, J. A., Baker, Gus A., & Jacoby, Ann. (2002). Development of a new seizure severity questionnaire: initial reliability and validity testing. *Epilepsy Research*, *48*(3), 187-197. doi:10.1016/S0920-1211(02)00003-7
- Cramer, J. A., Gordon, J., Schachter, S., & Devinsky, O. (2007). Women with epilepsy: Hormonal issues from menarche through menopause. *Epilepsy & behavior*, *11*(2), 160-178. doi:10.1016/j.yebeh.2007.03.007
- Cramer, J. A., Westbrook, L., Devinsky, O., Perrine, K. , Glassman, M. B., & Camfield, C. (1999). Development of the Quality of Life in Epilepsy Inventory for Adolescents: the QOLIE-AD-48. *Epilepsia*(0013-9580).

Crespo, C. (2011). "À mesa com a família": Rituais familiares ao longo do ciclo de vida. In P. M. Matos, C. Duarte, & M. E. Costa (Eds.), *Famílias: Questões de desenvolvimento e intervenção* (pp. 81-102). Porto: LivPsic.

Crespo, C., Carona, C., Silva, N., Canavarro, M., & Dattilio, F. (2011). Understanding the Quality of Life for Parents and Their Children Who have Asthma: Family Resources and Challenges. *Contemporary Family Therapy*, 33(2), 179-196. doi:10.1007/s10591-011-9155-5

Crespo, C., Davide, I.N., Costa, M.E., & Fletcher, G.O. (2008). Family rituals in married couples: Links with attachment, relationship quality, and closeness. *Personal Relationships*, 15(2), 191-203. doi:10.1111/j.1475-6811.2008.00193.x

Crespo, C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Jose, P. E. (2011). Family rituals in New Zealand families: Links to family cohesion and adolescents' well-being. *Journal of Family Psychology*, 25(2), 184-193. doi:10.1037/a0023113

Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology*, 48(5), 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811

Crespo, C., Santos, Susana, Tavares, Ana, & Salvador, Ágata. (2016). 'Care that matters': Family-centered care, caregiving burden, and adaptation in parents of children with cancer. *Families, Systems, & Health*, 34(1), 31-40. doi:10.1037/fsh0000166

Cross, J. Helen. (2011). Epilepsy in the WHO European region: Fostering epilepsy care in Europe. *Epilepsia*, 52(1), 187-188. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02903.x

Cummings, E. M., Davies, P., & Campbell, S. B. (2002). *Developmental psychopathology and family process : theory, research, and clinical implications*. New York; London: Guilford.

Curt LaFrance, Jr W., Alosco, Michael L., Davis, Jennifer Duncan, Tremont, Geoffrey, Ryan, Christine E., Keitner, Gabor I., . . . Blum, Andrew S. (2011). Impact of family functioning on quality of life in patients with psychogenic nonepileptic seizures versus epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 52(2), 292-300. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02765.x

Cushner-Weinstein, S., Dassoulas, K., Salpekar, J. A., Henderson, S. E., Pearl, P. L., Gaillard, W. D., & Weinstein, S. L. (2008). Parenting stress and childhood epilepsy: the impact of depression, learning, and seizure-related factors. *Epilepsy & behavior*, 13(1), 109-114. doi:10.1016/j.yebeh.2008.03.010

Cutrona, C.E., & Troutman, B.R. (1986). Social Support, Infant Temperament, and Parenting Self-Efficacy: A Mediation Model of Postpartum Depression. *Child Development*, 57(6), 1507-1518. doi:10.1111/1467-8624.ep7252276

Dagnan, D., & Waring, M. (2004). Linking stigma to psychological distress: testing a social-cognitive model of the experience of people with intellectual disabilities. *Clinical Psychology & Psychotherapy*, 11(4), 247-254. doi:10.1002/cpp.413

Davies, S., Heyman, I., & Goodman, R. (2003). A population survey of mental health problems in children with epilepsy. *Developmental medicine and child neurology*, 45(5), 292-295. doi:10.1111/j.1469-8749.2003.tb00398.x

Davis, E., Davies, B., Waters, E., & Priest, N. (2008). The relationship between proxy reported health-related quality of life and parental distress: gender differences. *Child: care, health and development*(1365-2214 (Electronic)), 830-837. doi:10.1111/j.1365-2214.2008.00866.x.

Davis, F. (1963). *Passage through crisis: Polio victims and their families* Minneapolis, MN: Bobbs-Merrill.

Davis, S., Katusic, Slavica K., Barbaresi, William J., Killian, Jill, Weaver, Amy L., Ottman, Ruth, & Wirrell, Elaine C. (2010). Epilepsy in Children With Attention-Deficit/Hyperactivity Disorder. *Pediatric Neurology*, 42(5), 325-330. doi:10.1016/j.pediatrneurol.2010.01.005

Davison, K. P., Pennebaker, J. W., & Dickerson, S. S. (2000). Who talks? The social psychology of illness support groups. *American Psychologist*, 55(2), 205-217. doi:10.1037/0003-066x.55.2.205

Deatrick, J. A., Alderfer, M. A., Knafl, G. , & Knafl, K. (2006). Identifying patterns of managing chronic conditions. In D. R. Crane & E. Marshall (Eds.), *Handbook of families & health: Interdisciplinary perspectives* (pp. 62–80). CA: Thousand Oaks, Sage.

Deatrick, J. A., Knafl, K. A., & Murphy-Moore, Carol. (1999). Clarifying the concept of normalization. *IMAGE: Journal of Nursing Scholarship*, 31(3), 209-214. doi:10.1111/j.1547-5069.1999.tb00482.x

Denham, S. A. (2003). Relationships between family rituals, family routines, and health. *Journal of Family Nursing*, 9(3), 305-330. doi:10.1177/1074840703255447

Devinsky, O., Gazzola, Deana, & LaFrance Jr, W. Curt. (2011). Differentiating between nonepileptic and epileptic seizures. *Nature Reviews Neurology*, 7(4), 210-220. doi:10.1038/nrneurol.2011.24

Devinsky, O., Vorkas, C., Barr, W. B., & Hermann, B. P. (2008). Personality Disorders en Epilepsy. In Timothy A. Pedley ; associate editors Jerome Engel Jr., Jean Aicardi ... [et al.] (Ed.), *Epilepsy : a comprehensive textbook* (2nd ed., Vol. 3, pp. 2015-2112). Philadelphia: Wolters Kluwer/Lippincott Williams & Wilkins.

Dibb, B., & Yardley, L. (2006). How does social comparison within a self-help group influence adjustment to chronic illness? A longitudinal study. *Social science & medicine*, 63(6), 1602-1613. doi:10.1016/j.socscimed.2006.03.031

Dickstein, S. (2002). Family routines and rituals-The importance of family functioning: Comment on the special section. *Journal of Family Psychology*, 16(4), 441-444. doi:10.1037/0893-3200.16.4.441

Dickstein, S., Seifer, Ronald, Hayden, Lisa C., Schiller, Masha, Sameroff, Arnold J., Keitner, Gabor, . . . Magee, Karin Dodge. (1998). Levels of family assessment: II. Impact of maternal psychopathology on family functioning. *Journal of Family Psychology*, 12(1), 23-40. doi:10.1037/0893-3200.12.1.23

Dilorio, Colleen, Escoffery, Cam, Yeager, Katherine A., Koganti, Archana, Reisinger, Elizabeth, Koganti, Archana, . . . Price, Patricia. (2009). WebEase: Development of a Web-Based Epilepsy Self-Management Intervention. *Preventing Chronic Disease*, 6(1), A28.

Dijkstra, A., Buunk, A. P., Tóth, G., & Jager, N. (2007). Psychological Adjustment to Chronic Illness: The Role of Prototype Evaluation in Acceptance of Illness. *Journal of Applied Biobehavioral Research*, 12(3-4), 119-140. doi:10.1111/j.1751-9861.2008.00018.x

Doughty, J., Baker, G. A., Jacoby, A., & Lavaud, V. (2003). Cross-cultural differences in levels of knowledge about epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 44(1), 115-123. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.34402.x

Dreifuss, F. E., & Nordli, D. R. . (2001). Classification of epilepsies in childhood. . In J. M. Pellock, W. E. Dodson, & B. F. D. Bourgeois (Eds.), *Pediatric epilepsy: Diagnosis and therapy* (2nd ed., pp. 69-80). New York: Demos.

Driscoll, K. A., Schatschneider, C., McGinnity, K., & Modi, A. C. (2012). Application of dyadic data analysis in pediatric psychology: cystic fibrosis health-related quality of life and anxiety in child-caregiver dyads. *Journal of pediatric psychology*, 37(6), 605-611. doi:10.1093/jpepsy/jss063

Drotar, D. (1997). Relating parent and family functioning to the psychological adjustment of children with chronic health conditions: What have we learned? What do we need to know? *Journal of pediatric psychology*, 22(2), 149-165. doi:10.1093/jpepsy/22.2.149.

Drotar, D. (2000). *Promoting adherence to medical treatment in chronic childhood illness: Concepts, methods, and interventions*. . Mahwah, NJ: Lawrence Erlbaum Associates.

Dumka, L.E., Gonzales, N.A., Wheeler, L.A., & Millsap, R.E. (2010). Parenting self-efficacy and parenting practices over time in Mexican American families. *Journal of Family Psychology*, 24(5), 522-531. doi:10.1037/a0020833

Dunn, D. W., Austin, J. K., Harezlak, J., & Ambrosius, W. T. (2003). ADHD and Epilepsy in Childhood. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 45(1), 50-54. doi:10.1017/S0012162203000094

Dunn, D. W., Buelow, J. M., Austin, J. K., Shinnar, S., & Perkins, S. M. (2004). Development of syndrome severity scores for pediatric epilepsy. *Epilepsia*, 45(6), 661-666. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.53903.x

Eiser, C. (1990). Psychological Effects of Chronic Disease. *Journal of Child Psychology & Psychiatry & Allied Disciplines*, 31(1), 85-98. doi:10.1111/1469-7610.ep17139105

- Eiser, C. (1997). Effects of Chronic Illness on children and their Families. *Advances in psychiatric treatment*, 3, 204-210. doi:10.1192/apt.3.4.204
- Elafros, M.A., Sakubita-Simasiku, C., Atadzhanov, M., Haworth, A., Chomba, E. , & Birbeck, G.L. . (2013). Stigma and psychiatric morbidity among mothers of children with epilepsy in Zambia. *International Health*, 5(4).
- Elliott, I. M., Lach, L., & Smith, M. L. (2005). I just want to be normal: a qualitative study exploring how children and adolescents view the impact of intractable epilepsy on their quality of life. *Epilepsy & behavior*, 7(4), 664-678. doi:10.1016/j.yebeh.2005.07.004
- Engel, J. (2001). A proposed diagnostic scheme for people with epileptic seizures and with epilepsy: report of the ILAE Task Force on Classification and Terminology. *Epilepsia*, 42(6), 796-803. doi:10.1046/j.1528-1157.2001.10401.x
- Engel, J. (2006). Report of the ILAE Classification Core Group. *Epilepsia (Series 4)*, 47(9), 1558-1568. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00215.x
- England, M. J., Liverman, C. T., Schultz, A. M., & Strawbridge, L. M. (2012). Epilepsy across the spectrum: promoting health and understanding. A summary of the Institute of Medicine report. *Epilepsy & behavior*, 25(2), 266-276. doi:10.1016/j.yebeh.2012.06.016
- EPI. (2017, setembro, 10). Escola Amiga. Retrieved from <http://www.epilepsia.pt/pt/epi/epi--escola-amiga>
- EPI (2018, janeiro, 26). Grupos de ajuda mútua. Retrieved from <http://www.epilepsia.pt/pt/epi/epi-gam-2>
- Erikson, E. H. (1980). *Identity and the life cycle*. New York: Norton.
- Eriksson, K. J., & Koivikko, M. J. (1997). Prevalence, classification, and severity of epilepsy and epileptic syndromes in children. *Epilepsia*, 38(12), 1275-1282. doi:10.1111/j.1528-1157.1997.tb00064.x
- Eysenck, H. I., & Eysenck, S. B. (1975). *Eysenck Personality Inventory Manual*. London: Hodder & Stoughton.
- Fastenau, P. S., Shen, J., Dunn, D. W., Perkins, S. M., Hermann, B. P., & Austin, J. K. (2004). Neuropsychological predictors of academic underachievement in pediatric epilepsy: moderating roles of demographic, seizure, and psychosocial variables. *Epilepsia*, 45(10), 1261-1272. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.15204.x
- Fayed, N., Davis, A. M., Streiner, D. L., Rosenbaum, P. L., Cunningham, C. E., Lach, L. M., . . . Ronen, G. M. (2015). Children's perspective of quality of life in epilepsy. *Neurology*, 84(18), 1830-1837. doi:10.1212/wnl.0000000000001536
- Fernandes, P. T. (2005). *Estigma na Epilepsia*. (Tese de Doutorado), FCM/UNICAMP, Campinas.

Fernandes, P. T., & Li, M. (2006). Percepção de estigma na epilepsia. *Journal of Epilepsy and Clinical Neurophysiology*, 12, 207-218. doi:10.1590/S1676-26492006000700004

Fernandes, P. T., Noronha, A. L., Sander, J. W., & Li, L. M. (2008). Stigma scale of epilepsy: the perception of epilepsy stigma in different cities in Brazil. *Arq Neuropsiquiatr*, 66(3A), 471-476. doi:10.1590/S0004-282X2008000400006

Fernandes, P. T., Snape, D. A., Beran, R. G., & Jacoby, A. (2011). Epilepsy stigma: What do we know and where next? *Epilepsy & behavior*, 22(1), 55-62. doi:10.1016/j.yebeh.2011.02.014

Fernandes, P. T., & Souza, E. A. (2001). Identification of family variables in parents' groups of children with epilepsy. *Arquivos de Neuro-Psiquiatria*, 59(4), 854-858. doi:10.1590/S0004-282X2001000600004

Ferro, M. A. (2014). Risk factors for health-related quality of life in children with epilepsy: a meta-analysis. *Epilepsia*, 55(11), 1722-1731. doi:10.1111/epi.12772.

Ferro, M. A., Avery, Lisa, Fayed, Nora, Streiner, David L., Cunningham, Charles E., Boyle, Michael H., . . . Ronen, Gabriel M. (2017). Child- and parent-reported quality of life trajectories in children with epilepsy: A prospective cohort study. *Epilepsia (Series 4)*, 58(7), 1277-1286. doi:10.1111/epi.13774

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011a). The impact of maternal depressive symptoms on health-related quality of life in children with epilepsy: a prospective study of family environment as mediators and moderators. *Epilepsia*, 52(2), 316-325. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02769.x

Ferro, M. A., Avison, W. R., Campbell, M. K., & Speechley, K. N. (2011b). Prevalence and trajectories of depressive symptoms in mothers of children with newly diagnosed epilepsy. *Epilepsia*, 52(2), 326-336. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02899.x

Ferro, M. A., Camfield, C. S., Levin, S. D., Smith, M. L., Wiebe, S., Zou, G.Y., & Speechley, K. N. (2013). Trajectories of health-related quality of life in children with epilepsy: A cohort study. *Epilepsia (Series 4)*, 54(11), 1889-1897. doi:10.1111/epi.12388

Ferro, M. A., & Speechley, K. N. (2009). Depressive symptoms among mothers of children with epilepsy: a review of prevalence, associated factors, and impact on children. *Epilepsia*, 50(11), 2344-2354. doi:10.1111/j.1528-1167.2009.02276.x

Fiese, B. (2006a). *Family routines and rituals* New Haven, CT: Yale University Press.

Fiese, B. (2006b). Who Took My Hot Sauce? Regulating Emotion in the Context of Family Routines and Rituals. In Douglas K. Snyder, Jeffry Simpson, & Jan N. Hughes (Eds.), *Emotion regulation in couples and families: Pathways to dysfunction and health*. (pp. 269-290). Washington, DC, US: American Psychological Association.

Fiese, B. (2007). Routines and rituals: Opportunities for participation in family health. *OTJR: Occupation, Participation and Health*, 27(Suppl1), 41-49. doi:10.1177/15394492070270s106

Fiese, B. (2016). Advancing family psychology. *Journal of Family Psychology*, 30(1), 1-1. doi:10.1037/fam0000182

Fiese, B., Foley, K., & Spagnola, M. (2006). Routine and ritual elements in family mealtimes: Contexts for child well-being and family identity. *New Directions for Child & Adolescent Development*, 2006(111), 67-89. doi:10.1002/cad.155

Fiese, B., Hooker, Karen A., Kotary, Lisa, & Schwagler, Janet. (1993). Family Rituals in the Early Stages of Parenthood. *Journal of Marriage & Family*, 55(3), 633-642.

Fiese, B., & Kline, C.A. (1993). Development of the Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology*, 6(3), 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290

Fiese, B., & Parke, R. D. (2002). Introduction to the special section on family routines and rituals. *Journal of Family Psychology*, 16(4), 379-380. doi:10.1037/0893-3200.16.4.379

Fiese, B., & Sameroff, A. (1989). Family context in pediatric psychology: a transactional perspective. *Journal of pediatric psychology*, 14(2), 293-314.

Fiese, B., Spagnola, M. , & Everhart, R. . (2008). Family Context in Developmental-Behavioral Pediatrics. In M. L. Wolraich, D. Drotar, P. Dworkin, & E. C. Perrin (Eds.), *Developmental-behavioral pediatrics: Evidence and practice* Philadelphia, PA: Mosby/Elsevier Publishers.

Fiese, B., Tomcho, T., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology*, 16(4), 381-390. doi:10.1037/0893-3200.16.4.381

Fiese, B., & Wamboldt, F. (2000). Family routines, rituals, and asthma management: A proposal for family-based strategies to increase treatment adherence. *Families, Systems, & Health*, 18(4), 405-418. doi:10.1037/h0091864

Fiese, B., Winter, M., Anbar, R., Howell, K., & Poltrock, S. (2008). Family climate of routine asthma care: associating perceived burden and mother-child interaction patterns to child well-being. *Family process*, 47(1), 63-79.

Finlay, W., Dinos, S., & Lyons, E. (2001). Stigma and multiple social comparisons in people with schizophrenia. *European Journal of Social Psychology*, 31(5), 579-592. doi:10.1002/ejsp.88

Fisher, R. S., Acevedo, C., Arzimanoglou, A., Bogacz, A., Cross, J. H., Elger, C. E., . . . Wiebe, S. (2014). ILAE Official Report: A practical clinical definition of epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 55(4), 475-482. doi:10.1111/epi.12550

Fisher, R. S., Cross, J. H., D'Souza, C., French, Jacqueline A., Haut, Sheryl R., Higurashi, Norimichi, . . . Zuberi, Sameer M. (2017). Instruction manual for the ILAE 2017 operational classification of seizure types. *Epilepsia (Series 4)*, 58(4), 531-542. doi:10.1111/epi.13671

Fisher, R. S., Cross, J. H., French, J. A., Higurashi, N., Hirsch, E., Jansen, F. E., . . . Zuberi, S. M. (2017). Operational classification of seizure types by the International League Against Epilepsy: Position Paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia*, 58(4), 522-530. doi:10.1111/epi.13670

Fisher, R. S., van Emde Boas, W., Blume, W., Elger, C., Genton, P., Lee, P., & Engel, J., Jr. (2005). Epileptic seizures and epilepsy: definitions proposed by the International League Against Epilepsy (ILAE) and the International Bureau for Epilepsy (IBE). *Epilepsia*, 46(4), 470-472. doi:10.1111/j.0013-9580.2005.66104.x

Fonseca, G., Cunha, D., Crespo, C., & Relvas, A. P. (2016). Families in the context of macroeconomic crises: A systematic review. *Journal of Family Psychology*, 30(6), 687-697. doi:10.1037/fam0000230

Forsgren, L., Beghi, E., Öun, A., & Sillanpää, M. (2005). The epidemiology of epilepsy in Europe – a systematic review. *European Journal of Neurology*, 12(4), 245-253. doi:10.1111/j.1468-1331.2004.00992.x

Gastaut, H., Caveness, W.F., Landolt, W., Lorentz-de-Haas, A.M., McNaughton, F.L., Magnus, O., . . . Storn-Van-Leeuwen, W. (1964). A Proposed International Classification of Epileptic Seizures. *Epilepsia*, 5(4), 297-306. doi:10.1111/j.1528-1157.1964.tb03337.x

Gavin, L., & Wysocki, T. (2006). Associations of paternal involvement in disease management with maternal and family outcomes in families with children with chronic illness. *Journal of pediatric psychology*, 31(5), 481-489. doi:10.1093/jpepsy/jsjo43

Geerts, Ada, Arts, Willem F., Stroink, Hans, Peeters, Els, Brouwer, Oebele, Peters, Boudewijn, . . . van Donselaar, Cees. (2010). Course and outcome of childhood epilepsy: A 15-year follow-up of the Dutch Study of Epilepsy in Childhood. *Epilepsia (Series 4)*, 51(7), 1189-1197. doi:10.1111/j.1528-1167.2010.02546.x

Gerhardt, Cynthia A., Vannatta, Kathryn, McKellop, J. Mark, Zeller, Meg, Taylor, Janalee, Passo, Murray, & Noll, Robert B. (2003). Comparing parental distress, family functioning, and the role of social support for caregivers with and without a child with juvenile rheumatoid arthritis. *Journal of pediatric psychology*, 28(1), 5-15. doi:10.1093/jpepsy/28.1.5

Gibbons, F. X., & Buunk, B. P. (1999). Individual differences in social comparison: development of a scale of social comparison orientation. *Journal of Personality & Social Psychology*, 76(1), 129-142.

Gilmore, L., & Cuskelly, M. (2009). Factor structure of the Parenting Sense of Competence scale using a normative sample. *Child: Care, Health & Development*, 35(1), 48-55. doi:10.1111/j.1365-2214.2008.00867.x

Giussani, G., Canelli, V., Bianchi, E., Erba, G., Franchi, C., Nobili, A., . . . Beghi, E. (2016). Long-term prognosis of epilepsy, prognostic patterns and drug resistance: a population-based study. *European Journal of Neurology*, 23(7), 1218-1227. doi:10.1111/ene.13005

Glauser, T.A. (2004). Behavioral and psychiatric adverse events associated with antiepileptic drugs commonly used in pediatric patients. *Journal of child neurology*, 19(Suppl 1), S25-38. doi:10.1177/088307380401900104

Glauser, T.A., Ben-Menachem, Elinor, Bourgeois, Blaise, Cnaan, Avital, Chadwick, David, Guerreiro, Carlos, . . . Tomson, Torbjorn. (2006). ILAE Treatment Guidelines: Evidence-based Analysis of Antiepileptic Drug Efficacy and Effectiveness as Initial Monotherapy for Epileptic Seizures and Syndromes. *Epilepsia (Series 4)*, 47(7), 1094-1120. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00585.x

Glauser, T.A., & Loddenkemper, T. (2013). Management of childhood epilepsy. *CONTINUUM: Lifelong Learning in Neurology*, 19(3), 656-681.

Goffman, E. (1963). *Stigma: notes on the management of spoiled identity*. New York: Touchstone.

Goldbeck, L. (2006). The impact of newly diagnosed chronic paediatric conditions on parental quality of life. *Qual Life Res*, 15(7), 1121-1131. doi:10.1007/s11136-006-0068-y

Gonzalez, S., Steinglass, P., & Reiss, D. (1989). Putting the illness in its place: discussion groups for families with chronic medical illnesses. *Family process*, 28(1), 69-87. doi:10.1111/j.1545-5300.1989.00069.x

Gouveira, L.M. (2017, 12 de Maio). Mensagem do Presidente. Retrieved from <http://www.epilepsia.pt/pt/epi/mensagem-do-presidente>

Green, M., & Solnit, A. J. (1964). Reactions to the threatened loss of a child: A vulnerable child syndrome. *Pediatrics*, 34(1), 58-66.

Guilfoyle, S. M., Follansbee-Junger, K., & Modi, A. C. (2013). Development and preliminary implementation of a psychosocial service into standard medical care for pediatric epilepsy. *Clinical Practice in Pediatric Psychology*, 1(3), 276-288. doi:10.1037/cpp0000031

Guilfoyle, S. M., Monahan, S., Wesolowski, Cindy, & Modi, Avani C. (2015). Depression screening in pediatric epilepsy: Evidence for the benefit of a behavioral medicine service in early detection. *Epilepsy & behavior*, 44, 5-10. doi:10.1016/j.yebeh.2014.12.021

Guilfoyle, S. M., Wagner, J. L., Modi, Avani C., Junger, Katherine F., Barrett, Lauren E., Riisen, Amanda C., . . . Weyand, Chelsea. (2017). Pediatric epilepsy and behavioral health: The state of the literature and directions for evidence-based interprofessional care, training, and research. *Clinical Practice in Pediatric Psychology*, 5(1), 79-90. doi:10.1037/cpp0000169

Guilfoyle, S. M., Wagner, J. L., Smith, G., & Modi, A. C. (2012). Early screening and identification of psychological comorbidities in pediatric epilepsy is necessary. *Epilepsy Behav*, 25(4), 495-500. doi:10.1016/j.yebeh.2012.09.041

S1525-5050(12)00603-8 [pii]

Hambleton, R. K., Merenda, P. F., & Spielberger, C. D. (2004). *Adapting educational and psychological tests for cross-cultural assessment*: Routledge.

Hamilton, Elena, & Carr, Alan. (2016). Systematic Review of Self-Report Family Assessment Measures. *Family process*, 55(1), 16-30. doi:10.1111/famp.12200

Hamiwka, L. D., & Wirrell, E. C. (2009). Comorbidities in pediatric epilepsy: beyond "just" treating the seizures. *Journal of child neurology*, 24(6), 734-742. doi:10.1177/0883073808329527

Haneef, Z., Grant, M., Valencia, I., Hobdell, E., Kothare, S., Legido, A., & Khurana, D. (2010). Correlation between child and parental perceptions of health-related quality of life in epilepsy using the PedsQL.v4.0 measurement model. *Epileptic Disorders*, 12(4), 275-282. doi:10.1684/epd.2010.0344

Harper, Dennis C. (1991). Paradigms for investigating rehabilitation and adaptation to childhood disability and chronic illness. *Journal of pediatric psychology*, 16(5), 533-542. doi:10.1093/jpepsy/16.5.533

Hatzmann, Janneke, Heymans, Hugo S. A., Ferrer-i-Carbonell, Ada, van Praag, Bernard M. S., & Grootenhuis, Martha A. (2008). Hidden consequences of success in pediatrics: Parental health-related quality of life—Results from the Care Project. *Pediatrics*, 122(5), e1030-e1038. doi:10.1542/peds.2008-0582

Hayes, A. (2013). *Introduction to Mediation, Moderation, and Conditional Process Analysis: A Regression-Based Approach*. NY: NY: Guilford Press.

Heimlich, T. E., Westbrook, L. E., Austin, J. K., Cramer, J. A., & Devinsky, O. (2000). Brief report: Adolescents' attitudes toward epilepsy: further validation of the Child Attitude Toward Illness Scale (CATIS). *J Pediatr Psychol*, 25(5), 339-345.

Herrmann, C. (1997). International experiences with the Hospital Anxiety and Depression Scale—a review of validation data and clinical results. *Journal of Psychosomatic Research*, 42(1), 17-41.

Herzer, M., Godiwala, N., Hommel, K. A., Driscoll, K., Mitchell, M., Crosby, L. E., . . . Modi, A. C. (2010). Family functioning in the context of pediatric chronic conditions. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, 31(1), 26-34. doi:10.1097/DBP.0b013e3181c7226b

Hoare, P., Mann, H. , & Dunn, S. . (2000). Parental perception of the quality of life among children with epilepsy or diabetes with a new assessment questionnaire. *Quality Of Life Research*, 9(6), 637-644.

Hodges, L., & Dibb, B. (2010). Social comparison within self-help groups: Views of parents of children with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of Health Psychology, 15*(4), 483-492. doi:10.1177/1359105309355491

Holmbeck, G. N. (2002a). A developmental perspective on adolescent health and illness: An introduction to the special issues. *Journal of pediatric psychology, 27*(5), 409-416. doi:10.1093/jpepsy/27.5.409

Holmbeck, G. N. (2002b). Post-hoc probing of significant moderational and mediational effects in studies of pediatric populations. *Journal of pediatric psychology, 27*(1), 87-96. doi:10.1093/jpepsy/27.1.87

Holmbeck, G. N., Coakley, R. M., Hommeyer, J. S., Shapera, W. E., & Westhoven, V. C. (2002). Observed and perceived dyadic and systemic functioning in families of preadolescents with spina bifida. *Journal of pediatric psychology, 27*(2), 177-189.

Holmbeck, G. N., & Devine, K. A. (2011). Commentary: Family assessment in pediatric psychology. *Journal of pediatric psychology, 36*(5), 642-646. doi:10.1093/jpepsy/jsr004

Hutton, A., Munt, R., Aylmer, C., & Deatrck, J. (2012). Using the family management measure in Australia. *Neonatal, pediatric and child health nursing 15*(2), 17-25. doi:10.13140/2.1.4492.3843

IBM Corp. (2012). *IBM SPSS Statistics for Macintosh, Version 21.0*. Armonk, NY: IBM Corp.

IBM Corp. (2016). *IBM SPSS Statistics for Macintosh, Version 24.0*. Armonk, NY: IBM Corp.

Imber-Black, E., & Roberts, J. (1998). *Rituals for our times: Celebrating, healing, and changing our lives and our relationships*. Northvale, NJ: Jason Aronson.

Ingerski, L. M., Modi, A. C., Hood, K. K., Pai, A. L., Zeller, M., Piazza-Waggoner, C., . . . Hommel, K. A. (2010). Health-related quality of life across pediatric chronic conditions. *Journal of pediatrics, 156*(4), 639-644. doi:10.1016/j.jpeds.2009.11.008

Institute of medicine. (2012). *Epilepsy Across the Spectrum: Promoting Health and Understanding*. Washington, DC: The National Academies Press

Jacobs, M., & Jensen, F. E. (2012). Introduction to institute of medicine report: epilepsy across the spectrum: promoting health and understanding. *Epilepsy Curr, 12*(6), 243-244. doi:10.5698/1535-7511-12.6.243

Jacoby, A. (2002). Stigma, epilepsy, and quality of life. *Epilepsy & behavior, 3*(6S2), 10-20. doi:10.1016/S1525505002005450 [pii]

Jacoby, A., & Austin, J. K. (2007). Social stigma for adults and children with epilepsy. *Epilepsia, 48 Suppl 9*, 6-9. doi:10.1111/j.1528-1167.2007.01391.x

Jacoby, A., Gorry, J., Gamble, Carrol, & Baker, Gus A. (2004). Public Knowledge, Private Grief: A Study of Public Attitudes to Epilepsy in the United Kingdom and Implications for Stigma. *Epilepsia, 45*(11), 1405-1415. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.02904.x

Jacoby, A., Snape, D. A., & Baker, Gus A. (2005). Epilepsy and social identity: the stigma of a chronic neurological disorder. *Lancet Neurology*, 4(3), 171-178. doi:10.1016/S1474-4422(05)01014-8

Johnston, C., & Mash, E.J. (1989). A measure of parenting satisfaction and efficacy. *Journal of Clinical Child Psychology*, 18(2), 167-175. doi:10.1207/s15374424jccp1802_8

Jones, C., & Reilly, C. (2016). Parental anxiety in childhood epilepsy: A systematic review. *Epilepsia*, 57(4), 529-537. doi:10.1111/epi.13326

Jones, J. E., Watson, R., Sheth, R., Caplan, R., Koehn, M., Seidenberg, M., & Hermann, B. P. (2007). Psychiatric comorbidity in children with new onset epilepsy. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 49(7), 493-497. doi:10.1111/j.1469-8749.2007.00493.x

Jones, T.L., & Prinz, R.J. (2005). Potential roles of parental self-efficacy in parent and child adjustment: a review. *Clinical Psychology Review*, 25(3), 341-363. doi:10.1016/j.cpr.2004.12.004

Joshi, C., Wawrykow, T., Patrick, J., & Prasad, A. (2005). Do clinical variables predict an abnormal EEG in patients with complex febrile seizures? *Seizure*, 14, 429—434. doi:10.1016/j.seizure.2005.07.006

Kale, Rajendra. (1997). Bringing epilepsy out of the shadows. *BMJ*, 315(7099), 2. doi:10.1136/bmj.315.7099.2

Kaslow, Nadine J., Celano, Marianne P., & Stanton, Mark. (2005). Training in Family Psychology: A Competencies-Based Approach. *Family process*, 44(3), 337-353. doi:10.1111/j.1545-5300.2005.00063.x

Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting Psychology*, 57(1), 25-30. doi:10.1037/0022-006x.57.1.25

Kazak, A. E. (1992). Family systems, social ecology, and chronic pediatric illness: Conceptual, methodological, and intervention issues. In J.T. Akamatsu, M. P. Stephens, S.E. Hobfoll, & J.H. Crowther (Eds.), *Family health psychology. Series in applied psychology: Social issues and questions* (pp. 93–110). Washington, DC: Hemisphere Publishing Corp.

Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Crump, T. A. (2003). Families and other systems in pediatric psychology. In M. C. Roberts (Ed.), *Handbook of pediatric psychology* (3rd. ed., pp. 159-175). NY: The Guilford Press.

Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Navsaria, N. (Eds.). (2009). *Families and other systems in pediatric psychology* (4th ed.). New York: Guilford Press.

Kazak, A. E., Segal-Andrews, A. M., & Johnson, K. (1995). Pediatric psychology research and practice: A family/systems approach. In Michael C. Roberts (Ed.), *Handbook of pediatric psychology* (2nd ed., pp. 84-104). New York, NY, US: Guilford Press.

- Kazak, A. E., Simms, S., & Rourke, M. T. (2002). Family systems practice in pediatric psychology. *Journal of pediatric psychology, 27*(2), 133-143. doi:10.1093/jpepsy/27.2.133
- Kenny, D. . (2011). Commentary: Dyadic Analyses of Family Data. *Journal of pediatric psychology, 36*(5), 630-633. doi:10.1093/jpepsy/jsp124
- Kenny, D., Kashy, D., & Cook, D. . (2006). *Dyadic data analysis*. New York: Guilford Press.
- Kline, R. (2011). *Principles and practice of structural equation modeling* (3rd ed.). New York, NY US: Guilford Press.
- Knafl, K. A., & Deatrck, J. A. (2002). The challenge of normalization for families of children with chronic conditions. *Pediatric Nursing, 28*(1), 49-56.
- Knafl, K. A., Deatrck, J. A., Gallo, A., Dixon, J., Grey, M., Knafl, G., & O'Malley, J. (2011). Assessment of the psychometric properties of the Family Management Measure. *Journal of pediatric psychology, 36*(5), 494-505. doi:10.1093/jpepsy/jsp034
- Knafl, K. A., Deatrck, J. A., Knafl, G. J., Gallo, A. M., Grey, M., & Dixon, J. K. (2013). Patterns of family management of childhood chronic conditions and their relationship to child and family functioning. *Journal of Pediatric Nursing, 523-535*. doi:10.1016/j.pedn.2013.03.006
- Knafl, K. A., & Gilliss, C. L. (2002). Families and chronic illness: A synthesis of current research. *Journal of Family Nursing, 8*(3), 178-198. doi:10.1177/10740702008003002
- Kratz, L., Uding, N., Trahms, C. M., Villareale, N., & Kieckhefer, G. M. (2009). Managing childhood chronic illness: Parent perspectives and implications for parent-provider relationships. *Families, Systems, & Health, 27*(4), 303-313. doi:10.1037/a0018114
- Kronenberger, William G., & Thompson, Robert J. (1990). Dimensions of family functioning in families with chronically ill children: A higher order factor analysis of the Family Environment Scale. *Journal of Clinical Child Psychology, 19*(4), 380-388. doi:10.1207/s15374424jccp1904_10
- Kupst, Mary Jo. (1994). Coping with pediatric cancer: Theoretical and research perspectives. In David J. Bearison, Raymond K. Mulhern, David J. Bearison, & Raymond K. Mulhern (Eds.), *Pediatric psychooncology: Psychological perspectives on children with cancer*. (pp. 35-60). New York, NY, US: Oxford University Press.
- Kwan, P., Arzimanoglou, Alexis, Berg, Anne T., Brodie, Martin J., Hauser, W. Allen, Mathern, Gary, . . . French, Jacqueline. (2010 jun). Definition of drug resistant epilepsy: Consensus proposal by the ad hoc Task Force of the ILAE Commission on Therapeutic Strategies. *Epilepsia, 51*(6), 1069-1077. doi:10.1111/j.1528-1167.2009.02397.x
- Kwan, P., & Sander, J. W. (2004). The natural history of epilepsy: an epidemiological view. *J Neurol Neurosurg Psychiatry, 75*(10), 1376-1381. doi:10.1136/jnnp.2004.045690

Kwan, P., Schachter, Steven C., & Brodie, Martin J. (2011). Drug-Resistant Epilepsy. *New England Journal of Medicine*, 365(10), 919-926. doi:10.1056/NEJMra1004418

La Greca, AM , & Bearman, KJ. (2003). Adherence to pediatric treatment regimens In MC Roberts (Ed.), *Handbook of Pediatric Psychology* (3rd ed., pp. 119-140). New York: Guilford.

Lach, L. M., Ronen, G. M., Rosenbaum, P. L., Cunningham, C., Boyle, M. H., Bowman, S., & Streiner, D. L. (2006). Health-related quality of life in youth with epilepsy: theoretical model for clinicians and researchers. Part I: the role of epilepsy and co-morbidity. *Quality of life research: an international journal of quality of life aspects of treatment, care and rehabilitation*, 15(7), 1161-1171.

Lambert, V., Gallagher, P., O'Toole, S., & Benson, A. (2014). Stigmatizing feelings and disclosure apprehension among children with epilepsy. *Nursing Child Young People*, 26(6), 22-26. doi:10.7748/ncyp.26.6.22.e440.

Laxer, Kenneth D., Trinka, Eugen, Hirsch, Lawrence J., Cendes, Fernando, Langfitt, John, Delanty, Norman, . . . Benbadis, Selim R. (2014). The consequences of refractory epilepsy and its treatment. *Epilepsy & behavior*, 37, 59-70. doi:10.1016/j.yebeh.2014.05.031

Laxman, Daniel J., McBride, Brent A., Jeans, Laurie M., Dyer, W. Justin, Santos, Rosa M., Kern, Justin L., . . . Weglarz-Ward, Jenna M. (2015). Father involvement and maternal depressive symptoms in families of children with disabilities or delays. *Maternal and Child Health Journal*, 19(5), 1078-1086. doi:10.1007/s10995-014-1608-7

Ledermann, T., & Macho, S. (2009). Mediation in dyadic data at the level of the dyads: A structural equation modeling approach. *Journal of Family Psychology*, 23(5), 661-670. doi:10.1037/a0016197

Ledermann, T., Macho, S., & Kenny, D. (2011). Assessing Mediation in Dyadic Data Using the Actor-Partner Interdependence Model. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 18(4), 595-612. doi:10.1080/10705511.2011.607099

Lemanek, K. L., Kamps, Jodi, & Chung, Natasha Brown. (2001). Empirically Supported Treatments in Pediatric Psychology: Regimen Adherence. *Journal of pediatric psychology*, 26(5).

Liu, H., Xu, Y., Lin, X., Shi, J., & Chen, S. (2013). Associations between Perceived HIV Stigma and Quality of Life at the Dyadic Level: The Actor-Partner Interdependence Model. *PLoS One*, 8(2), e55680. doi:10.1371/journal.pone.0055680

Liu, Xinjie, & Han, Qizheng. (2015). Risk Factors on Health-Related Quality of Life in Children With Epilepsy. *Clinical pediatrics*, 54(14), 1334-1338. doi:10.1177/0009922815580405

Loddenkemper, T., & Wyllie, E. (2010). Diagnostic issues in epilepsy. In Steven C. Schachter & Jr. W. Curt LaFrance (Eds.), *Gates and Rowan's Nonepileptic Seizures* (3rd Ed. ed., pp. 91-109). Cambridge: Cambridge University Press.

Loiselle, K. A., Ramsey, R. R., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2016). Trajectories of Health-Related Quality of Life Among Children With Newly Diagnosed Epilepsy. *Journal of pediatric psychology, 41*(9), 1011-1021. doi:10.1093/jpepsy/jsw019

Lopes, A.F., Monteiro, J.P., Fonseca, M.J., Robalo, C., & Simões, M.R. (2013). Risk Factors for school problems in children and adolescents with epilepsy *Revista Electronica de Psicologia, Educaçao e Saude, 2*, 47-59.

Lopes, A.F., Monteiro, José Paulo, Fonseca, Maria José, Robalo, Conceição, & Simões, Mário Rodrigues. (2014). Memory Functioning in Children with Epilepsy: Frontal Lobe Epilepsy, Childhood Absence Epilepsy, and Benign Epilepsy with Centrottemporal Spikes. *Behavioural Neurology, 1-8*. doi:10.1155/2014/218637

Lopes, A.F., Simões, M., Monteiro, J.P., Fonseca, M.J., Martins, C., Ventosa, L., . . . Robalo, C. . (2013). Intellectual functioning in children with epilepsy: Frontal lobe epilepsy, childhood absence epilepsy and benign epilepsy with centro-temporal spikes. *Seizure, 22*(10), 886-892. doi:10.1016/j.seizure.2013.08.002

Lopes-Lima, J. (1998). *Levantamento epidemiológico das epilepsias e dos síndromos epilépticos no Norte de Portugal*. (Tese de doutoramento em Medicina), Universidade do Porto, Porto.

Lopes-Lima, J. (2016). Epidemiologia. In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: Conceitos, diagnóstico e tratamento* (pp. 23-31). Lisboa: Lidel - Edições Técnicas Lda. .

Luthar, Suniya S., & Cicchetti, Dante. (2000). The Construct of Resilience: A Critical Evaluation and Guidelines for Future Work. *Child Development, 71*(3), 543.

Lv, R., Wu, L., Jin, L., Lu, Q., Wang, M., Qu, Y., & Liu, H. (2009). Depression, anxiety and quality of life in parents of children with epilepsy. *Acta neurologica Scandinavica, 120*(5), 335-341. doi:10.1111/j.1600-0404.2009.01184.x

Lyubomirsky, S., Tucker, K., & Kasri, F. (2001). Responses to hedonically conflicting social comparisons: comparing happy and unhappy people. *European Journal of Social Psychology, 31*(5), 511-535. doi:10.1002/ejsp.82

MacLeod, J. S., & Austin, J. K. (2003). Stigma in the lives of adolescents with epilepsy: a review of the literature. *Epilepsy & behavior, 4*(2), 112-117. doi:10.1016/S1525-5050(03)00007-6

Magiorkinis, E. , Diamantis, A. , Sidiropoulou, K. , & Panteliadis, C. . (2014). Highlights in the History of Epilepsy: The Last 200 Years. *Epilepsy Research and Treatment, 2014*, 13. doi:10.1155/2014/582039

Magiorkinis, E. , Sidiropoulou, K. , & Diamantis, A. . (2011). Hallmarks in the history of Epilepsy: From antiquity till the twentieth century. In H. Foyaca-Sibat (Ed.), *Novel Aspects on Epilepsy* (pp. 131-156). Rijeka, Croacia: INTECH.

Malmgren, K., Flink, R., Guekht, A. B., Michelucci, R., Neville, B., Pedersen, B., . . . Ozkara, C. (2003). The Provision of Epilepsy Care across Europe. *Epilepsia (Series 4)*, 44(5), 727-731. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.58402.x

Markson, S., & Fiese, B. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of pediatric psychology*, 25(7), 471-479. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471

Marôco, J. (2014). *Structural Equation Modeling: Theoretical background, software and applications (Original Portuguese title: “Análise de equações estruturais: Fundamentos teóricos, software e aplicações”)* (2nd ed.). Pero Pinheiro: Report Number.

Martins, A. (2016). Diagnóstico diferencial. In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: Conceitos, diagnóstico e tratamento* (pp. 75-88). Lisboa: Lidel - Edições Técnicas, Lda

Masia, Shawn L., & Devinsky, Orrin. (2000). Epilepsy and behavior: a brief history. *Epilepsy & behavior*, 1(1,Part1), 27-36. doi:10.1006/ebeh.1999.0021

Matos, P. M., & Fontaine, M. (1992). *Family Environment Scale - Adaptação Portuguesa [Family Environment Scale - Portuguese Version]* Unpublished manuscript, FPCEUP. Porto, Portugal.

McClellan, C. B., & Cohen, L. L. (2007). Family Functioning in Children with Chronic Illness Compared with Healthy Controls: A Critical Review. *The Journal of pediatrics*, 150(3), 221-223.e222. doi:10.1016/j.jpeds.2006.11.063

McCubbin, H. I., & McCubbin, M. A. (1991). Family stress theory and assessment: The Resiliency Model of Family Stress, Adjustment and Adaptation. In Hamilton I. McCubbin & Anne I. Thompson (Eds.), *Family assessment inventories for research and practice* (pp. 3-32). Madison, Wisc.: University of Wisconsin-Madison.

McCubbin, H. I., & Patterson, J. M. (1983). The Family Stress Process: The Double ABCX Model of adjustment and adaptation. In Hamilton I. McCubbin, Marvin B. Sussman, & Joan M. Patterson (Eds.), *Social stress and the family : advances and developments in family stress theory and research* (pp. 7-37). New York: Haworth Press.

McNelis, A., Buelow, J., Myers, J., & Johnson, E. (2007). Concerns and needs of children with epilepsy and their parents. *Clinical Nurse Specialist*, 21(4), 195-202.

McQuaid, E. L., Walders, N., Kopel, S. J., Fritz, G. K., & Klinnert, M. D. (2005). Pediatric asthma management in the family context: the family asthma management system scale. *Journal of pediatric psychology*, 30(6), 492-502. doi:10.1093/jpepsy/jsi074

Melamed, B. G. (2002). Parenting the ill child. In M. H. Bornstein (Ed.), *Handbook of parenting* (2nd ed., Vol. 5: Practical Issues in Parenting, pp. 329-348). Mahwah, New Jersey: Lawrence Erlbaum Associates.

Mendes, T., & Crespo, C. (2018, jan). *Resultados da versão portuguesa da Family Management Measure com famílias com condições crónicas pediátricas*. Poster apresentado no 12º Congresso Nacional de Psicologia da Saúde: ISPA, Lisboa.

Menezes, M., Moré, C., & Barros, L. (2008). Psicologia pediátrica e seus desafios actuais na formação, pesquisa e intervenção *Análise Psicológica*, 26(2), 227-238.

Miller, G. F., Coffield, Edward, Leroy, Zanie, & Wallin, Robin. (2016). Prevalence and Costs of Five Chronic Conditions in Children. *Journal of School Nursing*, 32(5), 357-364. doi:10.1177/1059840516641190

Miller, Victoria, Palermo, Tonya M., & Grewe, Scott D. (2003). Quality of life in pediatric epilepsy: demographic and disease-related predictors and comparison with healthy controls. *Epilepsy & behavior*, 4(1), 36. doi:10.1016/S1525-5050(02)00601-7

Minuchin, S. (1974). *Families and family therapy*. Cambridge, MA: Harvard University Press.

Modi, A. C. (2009). The impact of a new pediatric epilepsy diagnosis on parents: parenting stress and activity patterns. *Epilepsy & behavior*, 14(1), 237-242. doi:10.1016/j.yebeh.2008.10.009

Modi, A. C., Guilfoyle, S. M., & Wagner, J. L. (2017). Epilepsy. In M.C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (5th. ed., pp. 323-333). New York The Guilford Press.

Modi, A. C., Ingerski, L. M., Rausch, J. R., & Glauser, T. A. (2011). Treatment factors affecting longitudinal quality of life in new onset pediatric epilepsy. *Journal of pediatric psychology*, 36(4), 466-475. doi:10.1093/jpepsy/jsql14

Modi, A. C., Pai, A. L., Hommel, K. A., Hood, K. K., Cortina, S., Hilliard, M. E., . . . Drotar, D. (2012). Pediatric self-management: a framework for research, practice, and policy. *Pediatrics*, 129(2), e473-485. doi:10.1542/peds.2011-1635

Modi, A. C., Rausch, J. R., & Glauser, T. A. (2011). Patterns of nonadherence to antiepileptic drug therapy in children with newly diagnosed epilepsy. *Journal of the American Medical Association*, 305(16), 1669-1676. doi:10.1001/jama.2011.506

Moffat, C., Dorris, L., Connor, L., & Espie, C. A. (2009). The impact of childhood epilepsy on quality of life: a qualitative investigation using focus group methods to obtain children's perspectives on living with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 14(1), 179-189. doi:10.1016/j.yebeh.2008.09.025

Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family Environment Scale Manual* (2nd ed. ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.

Moreira, H., Carona, C., Silva, N., Frontini, R., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2013). Psychological and quality of life outcomes in pediatric populations: a parent-child perspective. *Journal of pediatrics*, 163(5), 1471-1478. doi:10.1016/j.jpeds.2013.06.028

Moreira, H., Frontini, R., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2013). Caring for a child with Type I diabetes: Links between family cohesion, perceived impact, and parental adjustment. *Journal of Family Psychology, 27*(5), 731-742. doi:10.1037/a0034198

Muehlan, H. . (2010). *Developing the DCGM-12:A short-form of the DISABKIDS condition-generic module assessing health related quality of life in children and adolescents with chronic conditions.* (Doctoral Thesis), University of Hamburg.

Muhlbauer, Susan. (2002). Experience of stigma by families with mentally ill members. *Journal of the American Psychiatric Nurses Association, 8*(3), 76-83. doi:10.1067/mpn.2002.125222

Mullins, Larry L., Molzon, Elizabeth S., Suorsa, Kristina I., Tackett, Alayna P., Pai, Ahna L. H., & Chaney, John M. (2015). Models of resilience: Developing psychosocial interventions for parents of children with chronic health conditions. *Family Relations: An Interdisciplinary Journal of Applied Family Studies, 64*(1), 176-189. doi:10.1111/fare.12104

Ngai, F. W., Wai-Chi, C., & Holroyd, E. (2007). Translation and validation of a chinese version of the parenting sense of competence scale in chinese mothers. *Nursing Research, 56*(5), 348-354. doi:10.1097/01.NNR.0000289499.99542.94

Nguyen, Sylvia, Pertini, Mark, & Kettler, Lisa. (2015). Parental cognitive appraisals and coping behaviours following child's epilepsy diagnosis: A qualitative study. *Clinical Child Psychology & Psychiatry, 20*(1), 20-38. doi:10.1177/1359104513494089

NICE. (2012, jan). Epilepsies: diagnosis and management. Retrieved from <https://www.nice.org.uk/guidance/cg137/resources/epilepsies-diagnosis-and-management-pdf-35109515407813>

Nutt, Roberta L., & Stanton, Mark. (2011). Family psychology specialty practice. *Couple and Family Psychology: Research and Practice, 1*(S), 92-105. doi:10.1037/2160-4096.1.S.91

O'Donoghue, M. F., S., Duncan J., & Sander, J. W. (1996). The National Hospital Seizure Severity Scale: a further development of the Chalfont Seizure Severity Scale. *Epilepsia, 37*(6), 563-571.

O'Toole, S., Benson, A., Lambert, V., Gallagher, P., Shahwan, A., & Austin, J. K. (2015). Family communication in the context of pediatric epilepsy: A systematic review. *Epilepsy & behavior, 51*, 225-239. doi:10.1016/j.yebeh.2015.06.043.

Observatório Nacional da Diabetes. (2016). *Diabetes: Factos e Números – O Ano de 2015 – Relatório Anual do Observatório Nacional da Diabetes 12/2016.* Lisboa: Sociedade Portuguesa de Diabetologia.

Oka, E., Ohtsuka, Y., Yoshinaga, H., Murakami, N., Kobayashi, K., & Ogino, T. (2006). Prevalence of childhood epilepsy and distribution of epileptic syndromes: a population-based survey in Okayama, Japan. *Epilepsia, 47*(3), 626-630. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00477.x

Olafsson, E., Ludvigsson, P., Gudmundsson, G., Hesdorffer, D., Kjartansson, O., & Hauser, W. A. (2005). Incidence of unprovoked seizures and epilepsy in Iceland and assessment of the epilepsy syndrome classification: a prospective study. *Lancet Neurol*, 4(10), 627-634. doi:10.1016/S1474-4422(05)70172-1

Olson, D. H., Russell, Candyce S., & Sprenkle, Douglas H. (1983). Circumplex Model of marital and family systems: VI. Theoretical update. *Family process*, 22(1), 69-83. doi:10.1111/j.1545-5300.1983.00069.x

Oostrom, K. J., Smeets-Schouten, A., Kruitwagen, C. L., Peters, A. C., Jennekens-Schinkel, A., & Dutch Study Group of Epilepsy in, Childhood. (2003). Not only a matter of epilepsy: early problems of cognition and behavior in children with "epilepsy only"--a prospective, longitudinal, controlled study starting at diagnosis. *Pediatrics*, 112(6 Pt 1), 1338-1344.

Oostrom, K. J., van Teeseling, H., Smeets-Schouten, A., Peters, A. C., Jennekens-Schinkel, A., & Dutch Study of Epilepsy in, Childhood. (2005). Three to four years after diagnosis: cognition and behaviour in children with 'epilepsy only'. A prospective, controlled study. *Brain*, 128(7), 1546-1555. doi:10.1093/brain/awh494

OPP. (2011). *Código deontológico*. Lisboa: Ordem dos Psicólogos Portugueses.

Oto, Maria. (2017). The misdiagnosis of epilepsy: Appraising risks and managing uncertainty. *Seizure*, 44, 143-146. doi:10.1016/j.seizure.2016.11.029

Ott, D., Siddarth, P., Gurbani, S., Koh, S., Tournay, A., Shields, W. D., & Caplan, R. (2003). Behavioral disorders in pediatric epilepsy: unmet psychiatric need. *Epilepsia*, 44(4), 591-597. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.25002.x

Pai, A. L., Lewandowski, A., Youngstrom, Eric, Greenley, Rachel Neff, Drotar, Dennis, & Peterson, Catherine Cant. (2007). A Meta-Analytic Review of the Influence of Pediatric Cancer on Parent and Family Functioning. *Journal of Family Psychology*, 21(3), 407-415.

Painter, E., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Changes in daily activity patterns of caregivers of children with newly diagnosed epilepsy: A case-controlled design. *Epilepsy & behavior*, 31, 1-6. doi:10.1016/j.yebeh.2013.11.001

Pais-Ribeiro, J., Silva, I., Ferreira, T., Martins, A., Meneses, R., & Baltar, M. (2007). Validation study of a Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale. *Psychology, Health & Medicine*, 12(2), 225-235; quiz 235-227. doi:10.1080/13548500500524088

Palermo, Tonya M., & Chambers, Christine T. (2005). Parent and family factors in pediatric chronic pain and disability: An integrative approach. *Pain*, 119(1-3), 1-4. doi:10.1016/j.pain.2005.10.027

Panayiotopoulos, C. P. (2007). *A clinical guide to epileptic syndromes and their treatment* (2nd ed.). London: Springer.

Patterson, J. M. (1991). Family resilience to the challenge of a child's disability. *Pediatric Annals*, 20(9), 491-499. doi: 10.3928/0090-4481-19910901-08

Patterson, J. M. (1993). *The role of family meanings in adaptation to chronic illness and disability*. Paper presented at the Cognitive coping, families, and disability, Baltimore, MD.

Pearce, N., Ait-Khaled, N., Beasley, R., Mallol, J., Keil, U., Mitchell, E., & Robertson, C. (2007). Worldwide trends in the prevalence of asthma symptoms: phase III of the International Study of Asthma and Allergies in Childhood (ISAAC). *Thorax*, 62(9)(0040-6376 (Print)), 758-766.

Pei-Fan, M. (2005). Paternal reactions to a child with epilepsy: uncertainty, coping strategies, and depression. *Journal of Advanced Nursing*, 49(4), 367-376. doi:10.1111/j.1365-2648.2004.03300.x

Pekcanlar-Akay, A., Hiz-Kurul, S., Ozek, H., Cengizhan, S., Emiroglu, N. , & Ellidokuz, H. (2011). Maternal reactions to a child with epilepsy: Depression, anxiety, parental attitudes and family functions. *Epilepsy Research*, 95(3), 213-220. doi:10.1016/j.eplepsyres.2011.03.020

Pereira, M., Melo, C., Gameiro, S., & Canavarro, M. C. (2011). Estudos psicométricos da versão em Português Europeu do índice de qualidade de vida EUROHIS-QOL-8 [Psychometric studies of the European Portuguese version of the quality of life index EUROHIS-QOL-8]. *Laboratório de Psicologia*, 9(2), 109-123

Perlick, D. A., Miklowitz, D. J., Link, B. G., Struening, E., Kaczynski, R., Gonzalez, J., . . . Rosenheck, R. A. (2007). Perceived stigma and depression among caregivers of patients with bipolar disorder. *The British Journal of Psychiatry*, 190(6), 535-536. doi:10.1192/bjp.bp.105.020826

Pianta, R. C., Marvin, Robert S., Britner, Preston A., & Borowitz, Kathleen C. (1996). Mothers' resolution of their children's diagnosis: Organized patterns of caregiving representations. *Infant Mental Health Journal*, 17(3), 239-256.

Pimentel, J., & Lopes-Lima, J. . (2016). Conceitos. In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: Conceitos, diagnóstico e tratamento*. Lisboa: Lidel - Edições Técnicas Lda

Pinquart, M. (2013). Do the parent-child relationship and parenting behaviors differ between families with a child with and without chronic illness? A meta-analysis. *Journal of pediatric psychology*, 38(7), 708-721.

Pinto, F. (2016). História da epilepsia. In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: Conceitos, diagnóstico e tratamento* (pp. 3-12). Lisboa: Lidel - Edições Técnicas, Lda.

Podsakoff, P. M., MacKenzie, S. B., & Podsakoff, N. P. (2012). Sources of Method Bias in Social Science Research and Recommendations on How to Control It. *Annual Review of Psychology*, 63(1), 539-569. doi:10.1146/annurev-psych-120710-100452

Porter, C. L., & Hui-Chin, H. (2003). First-Time Mothers' Perceptions of Efficacy During the Transition to Motherhood: Links to Infant Temperament. *Journal of Family Psychology*, 17(1), 54-64. doi:10.1037/0893-3200.17.1.54

Power, M. . (2003). Development of a common instrument for quality of life In A. Nosikov & C. Gudex (Eds.), *IEUROHIS: Developing Common Instruments for Health Surveys* (pp. 145-159). Amsterdam: IOS Press.

Preacher, K. J., & Hayes, A. F. (2008). Asymptotic and resampling strategies for assessing and comparing indirect effects in multiple mediator models. *Behavior Research Methods*, *40*(3), 879-891.

Raina, P., O'Donnell, M., Schwellnus, H., Rosenbaum, P., King, G., Brehaut, J., . . . Wood, E. (2004). Caregiving process and caregiver burden: conceptual models to guide research and practice. *BMC pediatrics*, *4*, 1. doi:10.1186/1471-2431-4-1

Ramsey, R. R., Loiselle, K. A., Rausch, J. R., Harrison, J., & Modi, A. C. (2016). Predictors of trajectories of epilepsy-specific quality of life among children newly diagnosed with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, *57*, 202-210. doi:10.1016/j.yebeh.2016.02.002

Reilly, C., & Neville, B.G. (2011). Academic achievement in children with epilepsy: A review. *Epilepsy Research*, *97*(1/2), 112-123. doi:10.1016/j.eplesyres.2011.07.017

Reilly, C., Taft, C., Nelander, M., Malmgren, K., & Olsson, I. (2015). Health-related quality of life and emotional well-being in parents of children with epilepsy referred for presurgical evaluation in Sweden. *Epilepsy & behavior*, *5*, 310-314. doi:10.1016/j.yebeh.2015.09.025

Reilly, Colin, Agnew, Robert, & Neville, Brian G. R. (2011). Depression and anxiety in childhood epilepsy: A review. *Seizure*, *20*(8), 589-597. doi:10.1016/j.seizure.2011.06.004

Reis, Ria, & Meinardi, Harry. (2002). ILAE/WHO 'out of the shadows campaign' stigma: Does the flag identify the cargo? *Epilepsy & behavior*, *3*(6,Pt3of3), S33-S37. doi:10.1016/S1525-5050(02)00546-2

Relvas, A. P. (1999). *Conversas com Famílias. Discursos e Perspectivas em Terapia Familiar*. Porto: Edições Afrontamento.

Relvas, A. P., & Major, S. . (2017). *Avaliação familiar: vulnerabilidade, stress e adaptação* (Vol. II). Coimbra: Imprensa da Universidade de Coimbra.

Reynolds, Edward H., & Trimble, Michael R. (2009). Epilepsy, psychiatry, and neurology. *Epilepsia (Series 4)*, *50*, 50-55. doi:10.1111/j.1528-1167.2009.02039.x

Rito, I. A., & Graça, P. . (2015). *Surveillance Childhood Obesity Initiative: COSI Portugal 2013*. Lisboa: Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, IP.

Robalo, C. (2016). Epilepsia na idade pediátrica. In J. Pimentel & C. Bentes (Eds.), *Epilepsia: conceitos, diagnóstico e tratamento* (pp. 281-298). Lisboa: Lidel - Edições Técnicas, Lda.

Roberts, M. C. , & Steele, R. G. (2017). *Handbook of pediatric psychology* (Fifth ed.). New York, NY, US.: The Guilford Press.

Rodenburg, R., Meijer, A., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2006). Family predictors of psychopathology in children with epilepsy. *Epilepsia*, 47(3), 601-614. doi:10.1111/j.1528-1167.2006.00475.x

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Dekovic, M., & Aldenkamp, A. P. (2007). Parents of children with enduring epilepsy: predictors of parenting stress and parenting. *Epilepsy & behavior*, 11(2), 197-207. doi:10.1016/j.yebeh.2007.05.001

Rodenburg, R., Meijer, A. M., Scherphof, C., Carpay, J.A., Augustijn, P., Aldenkamp, A.P., & Dekovic, M. (2013a). Parenting and restrictions in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 27(3), 497-503. doi:10.1016/j.yebeh.2013.01.026

Rodenburg, R., Meijer, A., Scherphof, C., Carpay, J., Augustijn, P., Aldenkamp, A., & Dekovic, M. (2013b). Parenting and restrictions in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 27(3), 497-503. doi:10.1016/j.yebeh.2013.01.026

Rodenburg, R., Stams, G. J., Meijer, A. M., Aldenkamp, A. P., & Dekovic, M. (2005). Psychopathology in children with epilepsy: a meta-analysis. *Journal of pediatric psychology*, 30(6), 453-468. doi:10.1093/jpepsy/jsi071

Rodenburg, R., Wagner, J. L., Austin, J. K., Kerr, M., & Dunn, D. W. (2011). Psychosocial issues for children with epilepsy. *Epilepsy & behavior*, In Press, Corrected Proof. doi:10.1016/j.yebeh.2011.04.063

Rodrigue, James R., Geffken, Gary R., Clark, Judith E., Hunt, Francie, & Fishel, Pamela. (1994). Parenting Satisfaction and Efficacy Among Caregivers of Children With Diabetes. *Children's Health Care*, 23(3), 181.

Rodrigues, N., & Patterson, J. M. (2007). Impact of severity of a child's chronic condition on the functioning of two-parent families. *Journal of pediatric psychology*, 32(4), 417-426. doi:10.1093/jpepsy/jsl031

Rolland, J. S. (1987). Family illness paradigms: Evolution and significance. *Family Systems Medicine*, 5(4), 482-503. doi:10.1037/h0089735

Rolland, J. S. (1994). *Families, illness, and disability: an integrative treatment model*. New York: BasicBooks.

Rolland, J. S., & Walsh, F. (2006). Facilitating family resilience with childhood illness and disability. *Current Opinion in Pediatrics*, 18(5), 527-538. doi:10.1097/01.mop.0000245354.83454.68

Ronen, G. M., Fayed, N., & Rosenbaum, P. L. (2011). Outcomes in pediatric neurology: a review of conceptual issues and recommendationsThe 2010 Ronnie Mac Keith Lecture. *Developmental medicine and child neurology*, 53(4), 305-312. doi:10.1111/j.1469-8749.2011.03919.x

Ronen, G. M., Streiner, D. L., & Rosenbaum, P. (2003a). Health-related quality of life in childhood epilepsy: moving beyond 'seizure control with minimal adverse effects'. *Health and quality of life outcomes*, 1, 36.

Ronen, G. M., Streiner, D. L., & Rosenbaum, P. (2003b). Health-related Quality of Life in Children with Epilepsy: Development and Validation of Self-report and Parent Proxy Measures. *Epilepsia (Series 4)*, 44(4), 598-612. doi:10.1046/j.1528-1157.2003.46302.x

Ronen, G. M., Streiner, D. L., Verhey, L. H., Lach, L., Boyle, M. H., Cunningham, C. E., . . . North American Pediatric Epilepsy, Q. O. L. Research Group. (2010). Disease characteristics and psychosocial factors: explaining the expression of quality of life in childhood epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 18(1-2), 88-93. doi:10.1016/j.yebeh.2010.02.023

Rood, J. E., Schultz, J. R., Rausch, J. R., & Modi, A. C. (2014). Examining perceived stigma of children with newly-diagnosed epilepsy and their caregivers over a two-year period. *Epilepsy & behavior*, 39, 38-41. doi:10.1016/j.yebeh.2014.08.004

Rosa, E.M., & Tudge, J. (2013). Urie Bronfenbrenner's theory of human development: Its evolution from ecology to bioecology. *Journal of Family Theory & Review*, 5(4), 243-258. doi:10.1111/jftr.12022

Rose, B. M., Holmbeck, G. N., Coakley, Rachael Millstein, & Franks, Elizabeth A. (2004). Mediator and Moderator Effects in Developmental and Behavioral Pediatric Research. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 25(1), 58-67. doi:10.1097/00004703-200402000-00013

Roskam, I., Meunier, J., & Stievenart, M. (2016). Do mothers and fathers moderate the influence of each other's self-efficacy beliefs and parenting behaviors on children's externalizing behavior? *Journal of Child & Family Studies*, 25(6), 2034-2045. doi:10.1007/s10826-016-0365-1

Russ, S. A., Larson, K., & Halfon, N. (2012). A National Profile of Childhood Epilepsy and Seizure Disorder. *Pediatrics*, 129(2), 256-264. doi:10.1542/peds.2010-1371

Ryan, R. M., Deci, E. L., & Grolnick, W. S. (1995). Autonomy, relatedness, and the self: Their relation to development and psychopathology. In Dante Cicchetti & Donald J. Cohen (Eds.), *Developmental psychopathology* (Vol. 1: Theory and methods., pp. 618-655). Oxford, England: John Wiley & Sons.

Ryan, R. M., Deci, E. L., Grolnick, W. S., & La Guardia, J. G. (2006). The significance of autonomy and autonomy support in psychological development and psychopathology. In Dante Cicchetti, Donald J. Cohen, Dante Cicchetti, & Donald J. Cohen (Eds.), *Developmental psychopathology: Theory and method, Vol. 1, 2nd ed.* (pp. 795-849). Hoboken, NJ, US: John Wiley & Sons Inc.

Sabaz, M., Cairns, D. R., Bleasel, A. F., Lawson, J. A., Grinton, B., Scheffer, I. E., & Bye, A. M. E. (2003). The health-related quality of life of childhood epilepsy syndromes. *Journal of Paediatrics & Child Health*, 39(9), 690-696. doi:10.1046/j.1440-1754.2003.00270.x

- Sabaz, M., Cairns, D. R., Lawson, J. A., Nheu, N., Bleasel, A. F., & Bye, A. M. (2000). Validation of a new quality of life measure for children with epilepsy. *Epilepsia*, *41*(6), 765-774.
- Sales, F. . (2010). *LPCE: Cuidados de Saúde em Epilepsia*. Lisboa: Sistema Nacional de Saúde.
- Salvador, A., Crespo, C., Martins, A., Santos, S., & Canavarro, M. C. (2015). Parents' Perceptions About Their Child's Illness in Pediatric Cancer: Links with Caregiving Burden and Quality of Life. *Journal of Child & Family Studies*, *24*(4), 1129-1140. doi:10.1007/s10826-014-9921-8
- Sameroff, A. J., & Chandler, M. J. . (1975). Reproductive risk and the continuum of caretaker casualty. In F. D. Horowitz (Ed.), *Review of child development research* (Vol. 4, pp. 187-244). Chicago, IL: University of Chicago Press.
- Sanford, K., Bingham, C. , & Zucker, R. (1999). Validity issues with the Family Environment Scale: Psychometric resolution and research application with alcoholic families. *Psychological Assessment*, *11*(3), 315-325. doi:10.1037/1040-3590.11.3.315
- Santos, M. C. (2010). *Vivência Parental da Doença Crônica, Estudo sobre a experiência subjectiva da doença com mães de crianças com fibrose quística e com diabetes* (1ª ed. Vol. 18). Lisboa: Edições Colibri/Instituto Politécnico de Lisboa
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2015). Family Rituals and Quality of Life in Children With Cancer and Their Parents: The Role of Family Cohesion and Hope. *Journal of pediatric psychology*, *40*(7), 664-671. doi:10.1093/jpepsy/jsv013
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2018). Family rituals when children have cancer: A qualitative study *Journal of Family Psychology*, (in press).
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of Life and Adjustment in Youths with Asthma: The Contributions of Family Rituals and the Family Environment. *Family process*, *51*(4), 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- Satir, V. (1983). *Conjoint Family Therapy* (3 rd. ed.). Palo Alto: CA: Science and Behavior Books.
- Scambler, G. (2004). Re-framing Stigma: Felt and Enacted Stigma and Challenges to the Sociology of Chronic and Disabling Conditions. *Social Theory & Health*, *2*(1), 29-46. doi:10.1057/palgrave.sth.8700012
- Scambler, G., & Hopkins, A. (1986). Being epileptic: coming to terms with stigma. *Sociology of Health & Illness*, *8*(1), 26-43. doi:10.1111/1467-9566.ep11346455
- Scambler, G., & Hopkins, A. (1990). Generating a model of epileptic stigma: The role of qualitative analysis. *Social science & medicine*, *30*(11), 1187-1194. doi:10.1016/0277-9536(90)90258-T
- Scheffer, I. E., Berkovic, Samuel, Capovilla, Giuseppe, Connolly, Mary B., French, Jacqueline, Guilhoto, Laura, . . . Zuberi, Sameer M. (2017). ILAE classification of the epilepsies:

Position paper of the ILAE Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia (Series 4)*, 58(4), 512-521. doi:10.1111/epi.13709

Scheffer, I. E., French, Jacqueline, Hirsch, Edouard, Jain, Satish, Mathern, Gary W., Moshé, Solomon L., . . . Zuberi, Sameer M. (2016). Classification of the epilepsies: New concepts for discussion and debate—Special report of the ILAE Classification Task Force of the Commission for Classification and Terminology. *Epilepsia Open*, 1(1-2), 37-44. doi:10.1002/epi4.5

Schiller, Yitzhak, & Najjar, Yussef. (2008). Quantifying the response to antiepileptic drugs: Effect of past treatment history. *Neurology*, 70(1), 54-65. doi:10.1212/01.wnl.0000286959.22040.6e:1526-632X

Schmidt, S., Debensason, D., Mühlhan, H., Petersen, C., Power, M., Simeoni, M. C., & Bullinger, M. (2006). The DISABKIDS generic quality of life instrument showed cross-cultural validity. *Journal of Clinical Epidemiology*, 59(6), 587-598. doi:10.1016/j.jclinepi.2005.09.012

Schmidt, S., Muhlan, H., & Power, M. (2006). The EUROHIS-QOL 8-item index: psychometric results of a cross-cultural field study. *European Journal of Public Health*, 16(4), 420-428 doi:10.1093/eurpub/cki155

Schneider, S., & Schupp, J. (2014). Individual Differences in Social Comparison and its Consequences for Life Satisfaction: Introducing a Short Scale of the Iowa-Netherlands Comparison Orientation Measure. *Social Indicators Research*, 115(2), 767-789. doi:10.1007/s11205-012-0227-1

Seabra-Santos, M.J., Major, S., Pimentel, M., Gaspar, M.F., Antunes, N., & Roque, V. (2015). Parenting Sense of Competence Scale (PSOC): Psychometric studies. *Avaliação Psicológica*, 14(1), 97-106. doi:10.15689/ap.2015.1401.11

Selassie, Anbesaw W., Wilson, Dulaney A., Martz, Gabriel U., Smith, Georgette G., Wagner, Janelle L., & Wannamaker, Braxton B. (2014). Epilepsy beyond seizure: A population-based study of comorbidities. *Epilepsy Research*, 108(2), 305-315. doi:10.1016/j.eplepsyres.2013.12.002

Serpell, Robert, Sonnenschein, Susan, & Baker, Linda. (2002). Intimate Culture of Families in the Early Socialization of Literacy. *Journal of Family Psychology*, 16(4), 391-405. doi:10.1037/0893-3200.16.4.391

Sevigny, P. R., & Loutzenhiser, L. (2010). Predictors of parenting self-efficacy in mothers and fathers of toddlers. *Child: Care, Health & Development*, 36(2), 179-189. doi:10.1111/j.1365-2214.2009.00980.x

Shinnar, S., & Pellock, J. M. (2002). Update on the epidemiology and prognosis of pediatric epilepsy. *Journal of child neurology*, 17(Suppl 1), S4-17. doi:10.1177/08830738020170010201

Shore, C. P., Austin, J. K., & Dunn, D. W. (2004). Maternal adaptation to a child's epilepsy. *Epilepsy & behavior*, 5(4), 557-568. doi:10.1016/j.yebeh.2004.04.015

Shore, C. P., Austin, J. K., Huster, G. A., & Dunn, D. W. (2002). Identifying risk factors for maternal depression in families of adolescents with epilepsy. *Journal for specialists in pediatric nursing*, 7(2), 71-80. doi:10.1111/j.1744-6155.2002.tb00153.x

Shore, C. P., Buelow, J. M., Austin, J. K., & Johnson, C. S. (2009). Continuing psychosocial care needs in children with new-onset epilepsy and their parents. *Journal of neuroscience nursing*, 41(5), 244-250. doi:10.1097/JNN.0b013e3181b2c721

Shore, C. P., Perkins, S. M., & Austin, J. K. (2008). The Seizures and Epilepsy Education (SEE) program for families of children with epilepsy: a preliminary study. *Epilepsy & behavior*, 12(1), 157-164. doi:10.1016/j.yebeh.2007.10.001

Sillanpaa, M., Jalava, M., Kaleva, O., & Shinnar, S. (1998). Long-term prognosis of seizures with onset in childhood. *The New England journal of medicine*, 338(24), 1715-1722. doi:10.1056/NEJM199806113382402

Sillanpaa, M., & Schmidt, D. (2009). Early seizure frequency and aetiology predict long-term medical outcome in childhood-onset epilepsy. *Brain*, 132(Pt 4), 989-998. doi:10.1093/brain/awn357

Silva, N., Crespo, C., Carona, C., Bullinger, M., & Canavarro, M. C. (2015). Why the (dis)agreement? Family context and child-parent perspectives on health-related quality of life and psychological problems in paediatric asthma. *Child: care, health and development*, 41(1), 112-121. doi:10.1111/cch.12147

Silveira, P. S. , Martins, L. F., Soares, R., Gomide, H., & Ronzani, T. (2011). Revisão sistemática da literatura sobre estigma social e alcoolismo. *Estudos de Psicologia*, 16, 131-138.

Simões, M. (1994). *Investigações no âmbito da aferição nacional do teste das Matrizes de Raven [Raven's Progressive Matrices: Aferition studies for the Portuguese population]*. (Unpublished Doctoral Dissertation), Universidade de Coimbra, Coimbra.

Smith, A. B., Selby, P.J., Velikova, Galina, Stark, Dan, Wright, E. P., Gould, Ann, & Cull, Ann. (2002). Factor analysis of the Hospital Anxiety and Depression Scale from a large cancer population. *Psychology and Psychotherapy: Theory, Research and Practice*, 75(2), 165-176. doi:10.1348/147608302169625

Smith, G., Wagner, J. L., & Edwards, J. C. (2015). Epilepsy Update, Part 2: Nursing Care and Evidence-Based Treatment. *AJN American Journal of Nursing*, 115(6), 34-46.

Smith, M. L., Elliott, I. M., & Lach, L. (2004). Cognitive, Psychosocial, and Family Function One Year after Pediatric Epilepsy Surgery. *Epilepsia (Series 4)*, 45(6), 650-660. doi:10.1111/j.0013-9580.2004.21903.x

Snaith, R. P., & Zigmond, A. S. (1994). *HADS: Hospital Anxiety and Depression Scale*. Windsor: NFER Nelson.

Soares, I. (2000). *Psicopatologia do desenvolvimento: Trajetórias (in)adaptativas ao longo da vida*. Coimbra: Quarteto Editora.

Song, L., Rini, C., Ellis, K., & Northouse, L. (2016). Appraisals, perceived dyadic communication, and quality of life over time among couples coping with prostate cancer. *Supportive Care in Cancer*, *24*(9), 3757-3765. doi:10.1007/s00520-016-3188-0

Spagnola, M., & Fiese, B. (2007). Family Routines and Rituals: A Context for Development in the Lives of Young Children. *Infants & Young Children: An Interdisciplinary Journal of Early Childhood Intervention*, *20*(4), 284-299.

Speechley, K. N., Ferro, M. A., Camfield, C. S., Huang, W., Levin, S. D., Smith, M. L., . . . Zou, G. (2012). Quality of life in children with new-onset epilepsy: a 2-year prospective cohort study. *Neurology*, *79*(15), 1548-1555. doi:10.1212/WNL.0b013e31826e25aa

Speechley, K. N., Sang, X., Levin, S., Zou, G. Y., Eliasziw, M., Smith, M. L., . . . Wiebe, S. (2008). Assessing severity of epilepsy in children: preliminary evidence of validity and reliability of a single-item scale. *Epilepsy & behavior*, *13*(2), 337-342. doi:10.1016/j.yebeh.2008.05.001

Spencer, N. J., Blackburn, C. M., & Read, J. M. (2015). Disabling chronic conditions in childhood and socioeconomic disadvantage: a systematic review and meta-analyses of observational studies. *BMJ Open*, *5*(9). doi:10.1136/bmjopen-2014-007062

Spinhoven, P., Ormel, J., Sloekers, P. P., Kempen, G. I., Speckens, A. E., & Van Hemert, A. M. (1997). A validation study of the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS) in different groups of Dutch subjects. *Psychological Medicine*, *27*(2), 363-370.

Stanton, A. L., Revenson, T. A., & Tennen, H. (2007). Health Psychology: Psychological Adjustment to Chronic Disease. *Annual Review of Psychology*, *58*(1), 565-592. doi:10.1146/annurev.psych.58.110405.085615

Stanton, M. (2009). The systemic epistemology of the specialty of family psychology. In James H. Bray & Mark Stanton (Eds.), *The Wiley-Blackwell handbook of family psychology* (pp. 5-20): Wiley-Blackwell.

Stanton, M., & Welsh, R. (2012). Systemic thinking in couple and family psychology research and practice. *Couple and Family Psychology: Research and Practice*, *1*(1), 14-30. doi:10.1037/a0027461

Steele, R.G., & Aylward, B. S. (2009). An overview of systems in pediatric psychology. In M.C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (pp. 651-655). New York, NY: The Guilford Press.

Stein, R. E., Bauman, L. , Westbrook, L. E., Coupey, S. M., & Ireys, H. T. (1993). Framework for identifying children who have chronic conditions: the case for a new definition. *Journal of pediatrics*, 122(3), 342-347. doi:10.1016/S0022-3476(05)83414-6

Stein, R. E., Bauman, L. J., Westbrook, L. E., Coupey, S. M., & Ireys, H. T. (1993). Framework for identifying children who have chronic conditions: the case for a new definition. *Journal of pediatrics*, 122(3), 342-347. doi:10.1016/S0022-3476(05)83414-6

Stein, R. E., & Jessop, D. J. (1982). A noncategorical approach to chronic childhood illness. *Public Health Reports*, 97(0033-3549 (Print)), 354-362.

Steinglass, P., & Horan, M. (1988). Families and chronic medical illness. In Froma Walsh & Carol M. Anderson (Eds.), *Chronic disorders and the family* (pp. 127-142). New York: Haworth Press.

Stevanovic, D., Jancic, J. , & Lakic, A. (2011). The impact of depression and anxiety disorder symptoms on the health-related quality of life of children and adolescents with epilepsy. *Epilepsia*(1528-1167 (Electronic)), e75-e78. doi:10.1111/j.1528-1167.2011.03133.x.

Streisand, R., Swift, E., Wickmark, Chen, R., & Holmes, C. S. . (2005). Pediatric Parenting Stress Among Parents of Children with Type I Diabetes: The Role of Self-Efficacy, Responsibility, and Fear. *Journal of pediatric psychology*, 30(6), 513-521. doi:10.1093/jpepsy/jsio76

Suls, J. (2003). Contributions of social comparison to physical illness and well-being. In J. Suls & K. Wallston (Eds.), *Social psychological foundations of health and illness*. (pp. 226-255). Malden: Blackwell Publishing.

Suurmeijer, Theo P. B. M., Reuvekamp, Marieke F., & Aldenkamp, Bert P. (2001). Social Functioning, Psychological Functioning, and Quality of Life in Epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 42(9), 1160-1168. doi:10.1046/j.1528-1157.2001.37000.x

Taylor, J., Jacoby, A., Baker, G. A., & Marson, A. G. (2011). Self-reported and parent-reported quality of life of children and adolescents with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, 52(8), 1489-1498. doi:10.1111/j.1528-1167.2011.03094.x

Temkin, O. . (1971). *The Falling Sickness: A History of Epilepsy from the Greeks to the Beginnings of Modern Neurology*. Baltimore and London: Johns Hopkins University Press.

Tennen, H., McKee, T. E., & Affleck, G. (2000). Social comparison processes in health and illness. In J. Suls & L. Wheeler (Eds.), *Handbook of social comparison: Theory and research*. (pp. 443-483). Dordrecht Netherlands: Kluwer Academic Publishers.

Thompson, R. J., Jr., & Gustafson, K. E. (1996). *Adaptation to chronic childhood illness*. Washington, DC, US: American Psychological Association.

Thornton, N., Hamiwka, L., Sherman, E., Tse, E., Blackman, M., & Wirrell, E. (2008). Family function in cognitively normal children with epilepsy: impact on competence and problem behaviors. *Epilepsy & behavior*, 12(1), 90-95. doi:10.1016/j.yebeh.2007.07.008

Tudge, Jonathan R. H., Mokrova, Irina, Hatfield, Bridget E., & Karnik, Rachana B. (2009). Uses and misuses of Bronfenbrenner's bioecological theory of human development. *Journal of Family Theory & Review*, 1(4), 198-210. doi:10.1111/j.1756-2589.2009.00026.x

Tzoufi, M., Mantas, C., Pappa, S., Kateri, M., Hyphantis, T., Pavlou, M., . . . Siamopoulou-Mavridou, A. (2005). The impact of childhood chronic neurological diseases on Greek families. *Child: Care, Health & Development*, 31(1), 109-115. doi:10.1111/j.1365-2214.2005.00492.x

Van Cleave, Jeanne, Gortmaker, Steven L., & Perrin, James M. (2010). Dynamics of Obesity and Chronic Health Conditions Among Children and Youth. *JAMA: Journal of the American Medical Association*, 303(7), 623-630. doi:10.1001/jama.2010.104.

Van der Zee, K., Buunk, B., Sanderman, R., Botke, G., & van den Bergh, F. (2000). Social comparison and coping with cancer treatment. *Personality and Individual Differences*, 28(1), 17-34. doi:10.1016/S0191-8869(99)00045-8

Van der Zee, K., Oldersma, F., Buunk, B.P., & Bos, D. (1998). Social Comparison Preferences Among Cancer Patients as Related to Neuroticism and Social Comparison Orientation. *Journal of Personality & Social Psychology*, 75(3), 801-810.

Varni, J. W., Limbers, C. A., & Burwinkle, T. M. (2007). Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health & Quality of Life Outcomes*, 5 (43), 1-15 doi:10.1186/1477-7525-5-43

Varni, J. W., Seid, M., & Kurtin, P. S. (2001). PedsQLTM 4.0: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life InventoryTM Version 4.0 Generic Core Scales in healthy and patient populations. *Medical Care*, 39(8), 800-812. doi:10.1097/00005650-200108000-00006

Verhey, L. H., Kulik, D. , Ronen, G. M., Rosenbaum, P., Lach, L., & Streiner, D. L. (2009). Quality of life in childhood epilepsy: what is the level of agreement between youth and their parents? *Epilepsy & behavior*, 14(2), 407-410. doi:doi:10.1016/j.yebeh.2008.12.008

Vogel, Erin A., Rose, Jason P., Okdie, Bradley M., Eckles, Kathryn, & Franz, Brittany. (2015). Who compares and despairs? The effect of social comparison orientation on social media use and its outcomes. *Personality & Individual Differences*, 86, 249-256. doi:10.1016/j.paid.2015.06.026

Von Bertalanffy, L. . (1969). *General System Theory: Foundations, Development, Applications* (Rev. ed.). New York: Penguin University Books.

Wade, S. L., Taylor, H. G. , Yeates, Keith Owen, Drotar, Dennis, Stancin, Terry, Minich, Non M., & Schluchter, Mark. (2006). Long-term Parental and Family Adaptation Following Pediatric Brain Injury. *Journal of pediatric psychology*, 31(10), 1072-1083. doi:10.1093/jpepsy/jsj077

Wagner, J.L., Kellermann, Tanja, Mueller, Martina, Smith, Gigi, Brooks, Byron, Arnett, Alex, & Modi, Avani C. (2016). Development and validation of the NDDI-E-Y: a screening tool

for depressive symptoms in pediatric epilepsy. *Epilepsia (Series 4)*, 57(8), 1265-1270. doi:10.1111/epi.13446

Wagner, J.L., Modi, A., Johnson, Erica K., Shegog, Ross, Escoffery, Cam, Bamps, Yvan, . . . Smith, Gigi. (2017). Self-management interventions in pediatric epilepsy: What is the level of evidence? *Epilepsia (Series 4)*, 58(5), 743-754. doi:10.1111/epi.13711

Wagner, J.L., Sample, P. L., Ferguson, P. L., Pickelsimer, E. E., Smith, G. M., & Selassie, A. W. (2009). Impact of pediatric epilepsy: voices from a focus group and implications for public policy change. *Epilepsy & behavior*, 16(1), 161-165. doi:10.1016/j.yebeh.2009.07.008

Wagner, J.L., & Smith, G. (2007). Pediatric epilepsy: The role of the pediatric psychologist. *Epilepsy & behavior*, 11, 253-256. doi:10.1016/j.yebeh.2007.06.009

Wagner, J.L., Smith, G., & Ferguson, P. (2012). Self-efficacy for seizure management and youth depressive symptoms: caregiver and youth perspectives. *Seizure*, 21(5), 334-339. doi:10.1016/j.seizure.2012.02.009

Wagner, J.L., Smith, G., Ferguson, P., van Bakergem, K., & Hrisiko, S. (2010). Pilot study of an integrated cognitive-behavioral and self-management intervention for youth with epilepsy and caregivers: Coping Openly and Personally with Epilepsy (COPE). *Epilepsy & behavior*, 18(3), 280-285. doi:10.1016/j.yebeh.2010.04.019

Wagner, J.L., Smith, G. M., Ferguson, P. L., & Wannamaker, B. B. (2009). Caregiver perceptions of seizure severity in pediatric epilepsy. *Epilepsia*, 50(9), 2102-2109. doi:10.1111/j.1528-1167.2009.02146.x

Wagner, J.L., Wilson, D. A., Smith, G., Malek, A., & Selassie, A. W. (2015). Neurodevelopmental and mental health comorbidities in children and adolescents with epilepsy and migraine: A response to identified research gaps. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 57(1), 45-52. doi:10.1111/dmcn.12555

Wallander, J. L., & Varni, J. W. (1998). Effects of pediatric chronic physical disorders on child and family adjustment. *Journal of child psychology and psychiatry, and allied disciplines*, 39(1), 29-46.

Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., Banis, H. T., DeHaan, C. B., & Wilcox, K. T. (1989). Disability parameters, chronic strain, and adaptation of physically handicapped children and their mothers. *Journal of pediatric psychology*, 14(1), 23-42.

Walsh, F. (1996). The concept of family resilience: Crisis and challenge. *Family process*, 35(3), 261-281. doi:10.1111/j.1545-5300.1996.00261.x

Weissberg-Benchell, J., Nansel, T., Holmbeck, G., Chen, R., Anderson, B., Wysocki, T., & Laffel, L. . (2009). Generic and Diabetes-specific Parent–Child Behaviors and Quality of Life Among Youth with Type 1 Diabetes. *Journal of pediatric psychology*, 34(9), 977-988. doi:10.1093/jpepsy/jsp003

Westbrook, L. E., Bauman, F. , & Shinnar, S. (1992). Applying stigma theory to epilepsy: a test of a conceptual model. *Journal of pediatric psychology*, 17(5), 633-649.

Weyand, C., Wagner, J. L., & Brooks, B. (2016). Pediatric psychology and epilepsy: A state of the field and call to action. *Clinical Practice in Pediatric Psychology*, 4(1), 90-97. doi:10.1037/cpp0000129

White, J. , Langer, E. , Yariv, L., & Welch, J. (2006). Frequent Social Comparisons and Destructive Emotions and Behaviors: The Dark Side of Social Comparisons. *Journal of Adult Development*, 13(1), 36-44. doi:10.1007/s10804-006-9005-0

WHO. (1946). Constitution of the World Health Organization. *American Journal of Public Health and the Nations Health*, 36(11), 1315-1323.

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. doi:10.1016/0277-9536(95)00112-K

Williams, J., & Mackinnon, D. P. (2008). Resampling and Distribution of the Product Methods for Testing Indirect Effects in Complex Models. *Struct Equ Modeling*, 15(1), 23-51. doi:10.1080/10705510701758166

Wilmshurst, Jo M., Gaillard, William D., Vinayan, Kollencheri Puthenveetil, Tsuchida, Tammy N., Plouin, Perrine, Van Bogaert, Patrick, . . . Cross, J. Helen. (2015). Summary of recommendations for the management of infantile seizures: Task Force Report for the ILAE Commission of Pediatrics. *Epilepsia*, 56(8), 1185-1197. doi:10.1111/epi.13057

Wirrell, E. C., Grossardt, Brandon R., Wong-Kisiel, Lily C. L., & Nickels, Katherine C. (2011). Incidence and classification of new-onset epilepsy and epilepsy syndromes in children in Olmsted County, Minnesota from 1980 to 2004: A population-based study. *Epilepsy Research*, 95(1/2), 110-118. doi:10.1016/j.eplepsyres.2011.03.009

WMA. (2013). World Medical Association Declaration of Helsinki ethical principles for medical research involving human subjects. *JAMA: Journal of the American Medical Association*, 310(20), 2191-2194. doi:10.1001/jama.2013.281053

Wo, S. W., Ong, L. C., Low, W. Y., & Lai, P. S. M. (2017). The impact of epilepsy on academic achievement in children with normal intelligence and without major comorbidities: A systematic review. *Epilepsy Research*, 136, 35-45. doi:10.1016/j.eplepsyres.2017.07.009

Wodrich, D. L., Kaplan, A. M., & Deering, W. M. (2006). Children with epilepsy in school: Special service usage and assessment practices. *Psychology in the Schools*, 43(2), 169-181. doi:10.1002/pits.20123

Wolf, P. (2010). Sociocultural History of Epilepsy. In C.P. Panayiotopoulos (Ed.), *Atlas of Epilepsies* (pp. 35-43). London: Springer London.

Wolin, S. J., & Bennett, L. A. (1984). Family rituals. *Family process*, 23(3), 401-420. doi:10.1111/j.1545-5300.1984.00401.x

Wood, J. V., & VanderZee, Karen. (1997). Social comparisons among cancer patients: Under what conditions are comparisons upward and downward? In Bram P. Buunk, Frederick X. Gibbons, Bram P. Buunk, & Frederick X. Gibbons (Eds.), *Health, coping, and well-being: Perspectives from social comparison theory*. (pp. 299-328). Mahwah, NJ, US: Lawrence Erlbaum Associates Publishers.

Wu, K. , Lieber, E., Siddarth, P., Smith, K., Sankar, R., & Caplan, R. (2008). Dealing with epilepsy: parents speak up. *Epilepsy & behavior*, 13(1), 131-138. doi:10.1016/j.yebeh.2008.03.008

Wu, Y. , Follansbee-Junger, K., Rausch, J., & Modi, A. (2014). Parent and family stress factors predict health-related quality in pediatric patients with new-onset epilepsy. *Epilepsia*, 55(6), 866-877. doi:10.1111/epi.12586

Wysocki, T., & Gavin, L. (2006). Paternal involvement in the management of pediatric chronic diseases: associations with adherence, quality of life, and health status. *Journal of pediatric psychology*, 31(5), 501-511. doi:10.1093/jpepsy/jsj042

Zhang, Y., Wei, M., Han, H. R., & Shen, N. (2013). Testing the Applicability of the Family Management Style Framework to Chinese Families. *Western Journal of Nursing Research*, 35(7), 920-942. doi:10.1177/0193945913482051

Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, 67(6), 361-370. doi:10.1037/t03589-000