



Ana Dias da Fonseca

2013

Transição para a parentalidade após um diagnóstico de anomalia congénita no bebé:

Reações ao diagnóstico e adaptação dos pais nos primeiros seis meses de vida do bebé

Psicologia Clínica

Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa



Ana Dias da Fonseca

2013

Transição para a parentalidade após um diagnóstico de anomalia congénita no bebé:

Reações ao diagnóstico e adaptação dos pais nos primeiros seis meses de vida do bebé

Dissertação de Doutoramento em Psicologia Clínica, orientada pela Professora Doutora
Maria Cristina Cruz Sousa Portocarrero Canavarro

Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra
Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa

Título: Transição para a parentalidade após um diagnóstico de anomalia congénita no bebé: Reações ao diagnóstico e adaptação dos pais nos primeiros seis meses de vida do bebé

Autor: Ana Dias da Fonseca

Orientação científica: Maria Cristina Cruz Sousa Portocarrero Canavarro

Domínio científico: Psicologia – Psicologia Clínica: Psicologia da Família e Intervenção Familiar. Dissertação de Doutoramento realizada no âmbito do Programa de Doutoramento Interuniversitário em Psicologia Clínica da Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e da Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa.

Instituições Científicas: Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa

Dissertação de Doutoramento em Psicologia Clínica – Psicologia da Família e Intervenção Familiar, realizada no âmbito do Programa de Doutoramento Interuniversitário, apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra e à Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa, sob a orientação da Professora Doutora Maria Cristina Canavarro.

Este trabalho foi apoiado por uma Bolsa de Doutorado concedida pela
Fundação para a Ciência e Tecnologia [SFRH/BD/47053/2008].

Agradecimentos

O percurso que iniciei há cerca de quatro anos culmina agora, com a apresentação deste trabalho. Ao longo destes anos, tive o privilégio de contar com o conhecimento, a ajuda e o apoio de muitas pessoas que tornaram o processo e o(s) seu(s) resultado(s) mais ricos e me ajudaram a crescer enquanto profissional e pessoa. Mesmo considerando que o melhor agradecimento é poder retribuir, no dia a dia, essa ajuda e apoio, esta é também a hora de dizer Obrigada!

Agradeço à Professora Doutora Cristina Canavarro, pela orientação científica desta tese de Doutoramento, pelas oportunidades de aprendizagem e desenvolvimento de competências (que não se esgotam nas competências científicas) que me proporcionou ao longo deste percurso, e pelas interações gratificantes. Agradeço-lhe também pelos desafios que me foi lançando, mesmo antes de este projeto começar, e pela forma como confia em mim e no meu trabalho. Agradeço-lhe ainda pela oportunidade de, ao longo destes anos, poder ter funcionado neste duplo eixo entre a investigação e a prática clínica, que me faz sentir tão completa (e por compreender isso).

Agradeço ao Professor Doutor José Sousa Barros e ao Dr. António Lobo (responsáveis pela consulta de Patologia do Desenvolvimento) e à Dr.^a Rosa Ramalho (Diretora do Serviço de Neonatologia) da Maternidade Doutor Daniel de Matos, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, EPE, por terem criado as condições necessárias para que este projeto se concretizasse e pelo interesse que por ele demonstraram. Pelo contacto mais direto e pela forma generosa e atenta como colaborou no processo de recolha de amostra, deixo um especial agradecimento ao Dr. António Lobo. Agradeço ainda ao Professor Doutor José Barros e ao Dr. António Lobo a revisão atenta do primeiro ponto do Enquadramento Teórico deste trabalho.

Agradeço também ao Serviço de Cardiologia Pediátrica do Hospital Pediátrico de Coimbra, na pessoa do seu Diretor, o Dr. Eduardo Castela, por ter igualmente demonstrado interesse e criado as condições necessárias para a execução deste projeto, mesmo sendo eu um elemento “estranho” ao Serviço. Para que a recolha de amostra fosse possível, contei com a colaboração generosa da Dr.^a Paula Martins, a quem também presto o meu agradecimento.

Uma palavra de agradecimento ao Dr. Francisco Tavares (Consulta de Diagnóstico Pré-Natal) e à D. Eugénia, pela forma interessada como colaboraram num projeto associado a este, e no qual também participei.

À Bárbara Nazaré, que comigo partilhou este percurso, agradeço as aprendizagens, a discussão de ideias, as sugestões e as revisões atentas de todo trabalho que, sem dúvida, tornaram o resultado melhor e o processo mais rico. Foi uma excelente parceria, uma *máquina bem oleada*, que tornou a tarefa menos solitária, mais cúmplice e mesmo divertida. Mas agradeço-lhe também (e, se calhar, acima de tudo) o privilégio da sua amizade, que é recíproca.

Agradeço também a todos os restantes colegas e amigos da Linha de Investigação *Relações, Desenvolvimento & Saúde* e/ou da Unidade de Intervenção Psicológica (UnIP) da

Maternidade Doutor Daniel de Matos: a Anabela, a Carla, o Carlos, a Cláudia, a Helena, a Joana, o Marco, a Mariana, a Maryse, a Neuza, a Paula, a Raquel, a Roberta, a Sofia (ainda que agora esteja geograficamente mais distante), a Sónia, a Susana, o Tiago e a Vânia. Agradeço não só as partilhas de conhecimento, as sugestões úteis na revisão de alguns dos produtos científicos que integram este trabalho, mas também o ambiente amistoso, generoso e bem-disposto que caracterizam a equipa, e que me fazem sentir bem aqui. À Cláudia, agradeço ainda a revisão atenta de um dos capítulos deste trabalho. À Anabela, agradeço o contributo que deu para a minha formação clínica, e que espero de alguma forma ter conseguido refletir, também, neste trabalho.

Quero também agradecer aos Professores e Colegas da 1ª Edição do Programa Interuniversitário de Doutoramento em Psicologia Clínica. Aos Professores, agradeço a iniciativa de criar este projeto e as aprendizagens que potenciaram. Em particular à Prof. Doutora Isabel Narciso, pelas sugestões úteis que deu na avaliação do projeto de Doutoramento, e à Prof. Ana Sousa Ferreira, pelo conhecimento, sugestões e esclarecimento de algumas dúvidas estatísticas ao longo do percurso, o meu obrigada. Aos colegas, agradeço a partilha de experiências, a simpatia e a capacidade de encontrarem pontos comuns na diversidade dos nossos percursos.

Agradeço também àqueles que fazem parte do meu núcleo de afetos e cujo contributo foi indireto, mas também essencial para o percurso e para este resultado: os meus amigos e a minha família. Aos meus amigos (alguns de infância – Ana, Cláudia, Ester, Joana –, outros que tive o privilégio de encontrar nos últimos anos: para além dos que já mencionei a Diana, a Sílvia, a Sara, a Vanessa, a Joana, a Carina,...), por me terem proporcionado o apoio emocional necessário, por me fazerem rir, por serem isso mesmo: Amigos.

À minha família – os meus pais, avó(s) (porque os que não estão hoje presentes também me ajudaram a crescer), tios, padrinhos e primos – agradeço pelo apoio, carinho e reforço constantes, que me permitiram sempre prosseguir, segura dos passos que dava e com a certeza de que, independentemente do resultado, não estaria (nem estou) sozinha. Agradeço em particular aos meus pais, porque são um porto seguro e um exemplo de dedicação, de responsabilidade, de amor; é muito difícil expressar em palavras a dimensão do meu Obrigada!

Ao João, por querer integrar a minha família, por confiar e acreditar em mim, pela cumplicidade, amor e companheirismo. Por ser muitas vezes um balão de oxigénio, que permitiu ganhar novo fôlego para continuar esta tarefa.

As minhas últimas palavras de agradecimento vão para todas as mães e pais que, de forma altruísta e generosa, participaram nesta investigação, mesmo quando enfrentavam um acontecimento cheio de desafios; para além de tornarem este trabalho verdadeiramente possível, lembraram-me, em cada momento, que eles (e outros casais que passam pela mesma experiência) eram o *fim último* desta investigação.

“Acredito que o receio do futuro e a angústia da má notícia é partilhada por pais e técnicos (...). Todavia, ao contrário do que muitos temem, a maior parte dos pais fica agradecida por se lhes comunicar a verdade, ainda que dura, em linguagem que eles entendem, e se ao mesmo tempo o desgosto é enorme e o futuro incerto, pelo menos desaparece a névoa da dúvida que impede a visão do caminho”.

(Nuno Lobo Antunes, 2009, p. 21)

Índice

Índice de Quadros	13
Índice de Figuras	15
Abreviaturas e Siglas	17
Resumo	19
Abstract	21
Nota Introdutória	23
Capítulo 1 Enquadramento Teórico	27
1. Anomalias congénitas: definição, etiologia e prevalência	29
2. Os desafios da ocorrência de um diagnóstico de anomalia congénita no bebé durante o período pré ou pós-natal	33
3. O processo de (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita no bebé	39
4. A (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita no bebé: resultados e lacunas da investigação	43
Capítulo 2 Apresentação dos objetivos e da metodologia da investigação	57
1. Objetivos da investigação	59
2. Opções metodológicas	62
2.1. Desenho da investigação	62
2.2. Participantes e procedimentos de recolha da amostra	63
2.3. Métodos de recolha de informação: questionários e fichas de dados	68
2.4. Respeito pelos princípios éticos	79
2.5. Análises estatísticas	81
Capítulo 3 Estudos Empíricos	85
Estudo Empírico I Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly	87
Estudo Empírico II Clinical determinants of parents' emotional reactions to the disclosure of a diagnosis of congenital anomaly	107
Estudo Empírico III Parental psychological distress and quality of life after a prenatal or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy babies	129

Estudo Empírico IV Parental psychological distress and confidence after an infant's birth: The role of attachment representations in parents of infants with congenital anomalies and parents of healthy infants	151
Estudo Empírico V The role of satisfaction with social support in perceived burden and stress of parents of six-month-old infants with a congenital anomaly: Actor and partner effects	179
Estudo Empírico VI Parenting an infant with a congenital anomaly: An exploratory study on patterns of adjustment from diagnosis to six months post-birth	201
Capítulo 4 Síntese e Discussão dos Resultados	219
1. Síntese e discussão integrada dos resultados	221
2. Contributos para a investigação: pontos fortes e limitações do presente trabalho e implicações para a investigação futura	233
3. Contributos para a prática clínica	236
Referências bibliográficas	243
Anexo	267
Estudo de Revisão da Literatura Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congénita no bebé: Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde	269

Índice de Quadros

Quadros do Capítulo 1 | Enquadramento Teórico e do Capítulo 2 | Apresentação dos Objetivos e da Metodologia da Investigação

Quadro 1 Classificação das anomalias congénitas de acordo com a CID-10	29
Quadro 2 Objetivos específicos da investigação (Estudos Empíricos)	61
Quadro 3 Critérios de inclusão para o grupo clínico e para o grupo de controlo	64
Quadro 4 Dimensões avaliadas e instrumentos utilizados nos diferentes momentos de avaliação: Grupo clínico e grupo de controlo	69

Quadros dos Estudos Empíricos

Estudo Empírico I

Table 1 Socio-demographic and clinical characterization of the sample	95
Table 2 Parental emotional reactions to the disclosure of the DCA: Frequency and intensity	97
Table 3 Cluster profiles of parental emotional reactions: Between-groups differences regarding intensity and frequency by gender	98

Estudo Empírico II

Table 1 Sample socio-demographic and clinical characteristics	115
Table 2 Gender differences on cluster membership and average intensity of the parents' emotional reactions at the disclosure of a DCA	117
Table 3 Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of prior knowledge about the DCA	119
Table 4 Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of (un)certainly regarding the DCA	120
Table 5 Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of history of pregnancy loss (presence vs. absence)	121

Estudo Empírico III

Table 1 Socio-demographic and clinical characteristics of the sample	139
Table 2 Maternal and paternal psychological distress and QoL: Descriptive statistics, correlations, group and gender effects	141

Estudo Empírico IV

Table 1 Socio-demographic and clinical characterization of the sample	161
Table 2 Parental psychological distress and confidence: Group, gender, and interaction effects	164
Table 3 Predictors of maternal adjustment: Main and interaction effects	166
Table 4 Predictors of paternal adjustment: Main and interaction effects	167

Estudo Empírico V

Table 1 Sample socio-demographic and clinical characteristics	188
Table 2 Pearson correlations between socio-demographical and clinical variables, satisfaction with support and parental adjustment	190
Table 3 Effects of satisfaction with support from family and friends on maternal and paternal adjustment: Actor and partner effects	191
Table 4 Partner effects of satisfaction with support on adjustment: Examining indirect effects	193

Estudo Empírico VI

Table 1 Sample socio-demographic and clinical characteristics	208
Table 2 Main and interaction effects of time, timing of diagnosis, and gender in psychological distress and quality of life: Multivariate and univariate effects	212
Table 3 Parents in each cluster of adjustment at diagnosis (T1) and six months after the infant's birth (T2)	213

Índice de Figuras

Figuras do Capítulo 1 | Enquadramento Teórico e do Capítulo 2 | Apresentação dos Objetivos e da Metodologia da Investigação

Figura 1 Prevalência de anomalias congénitas no período 1990-2010 (registo combinado de todos os países-membros EUROCAT; EUROCAT, 2012)	32
Figura 2 Modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983)	42
Figura 3 Desenho da investigação: Momentos de avaliação	63
Figura 4 Grupo clínico: Participantes nos diferentes momentos de avaliação	67

Figuras dos Estudos Empíricos

Estudo Empírico IV

Figure 1 The moderating effect of group on the association between Avoidance and Anxiety (attachment dimensions) and paternal depressive symptoms	168
--	-----

Estudo Empírico V

Figure 1 Actor-Partner Interdependence Model: Actor and partner effects of satisfaction with support in parental adjustment	186
--	-----

Estudo Empírico VI

Figure 1 Parental psychological distress and quality of life at diagnosis (T1) and six months after the infant's birth (T2)	211
--	-----

Abreviaturas e siglas

AC – Anomalia congénita

CA – Congenital anomaly

DCA – Diagnosis of congenital anomaly

EUROCAT – European Surveillance of Congenital Anomalies

IMG – Interrupção médica da gravidez

NICU – Newborn Intensive Care Unit

OMS – Organização Mundial de Saúde

QoL – Quality of Life

RENAC – Registo Nacional de Anomalias Congénitas

UCIN – Unidade de Cuidados Intensivos Neonatais

WHO – World Health Organization

Resumo

Introdução: O diagnóstico pré ou pós-natal de anomalia congénita pode ser conceptualizado como um acontecimento indutor de *stress*, na medida em que, de forma inesperada, confronta os pais com a necessidade de lidar com a informação médica complexa sobre a anomalia congénita, com a interrupção das expectativas parentais de um bebé perfeito e saudável e com as exigências acrescidas de prestação de cuidados ao bebé. Assim, este acontecimento pode representar um fator de risco para a inadaptação à parentalidade. Ancorada numa perspetiva desenvolvimental e ecológica e no contributo específico dos modelos de *stress* familiar, esta investigação centrou-se na (in)adaptação dos pais à gravidez e ao nascimento de um filho, quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita. Especificamente, este trabalho teve como objetivo caracterizar as reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico, bem como a adaptação individual e parental, desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé. Foi também objetivo deste trabalho compreender o processo de (in)adaptação dos pais, investigando o papel de diferentes variáveis (clínicas, recursos pessoais - como as representações de vinculação - e o apoio social) neste processo.

Metodologia: Esta investigação assenta num desenho prospetivo longitudinal, com dois (para os casais cujo bebé foi diagnosticado no período pós-natal) ou três momentos de avaliação (para os restantes casais): um mês após o diagnóstico de anomalia congénita e um mês e seis meses após o nascimento do bebé. Participaram 60 casais (60 mães e 50 pais) no primeiro momento de avaliação e 43 casais (43 mães e 36 pais) no último momento de avaliação (atrito experimental: 28,3%). Foi também constituído um grupo de controlo, composto por pais de bebés saudáveis. Para além de dados sociodemográficos e clínicos, foi também recolhida informação relativa ao processo de comunicação do diagnóstico, bem como a indicadores de adaptação individual (sintomatologia psicopatológica e qualidade de vida) e parental (confiança parental, *stress* parental e sobrecarga associada à prestação de cuidados). Foram também avaliados os recursos da família (as representações de vinculação e o apoio social).

Resultados: Destacamos os seguintes resultados: i) foram encontrados dois padrões distintos de resposta emocional dos pais à notícia do diagnóstico, um semelhante ao padrão de respostas agudas de luto e outro caracterizado por reações emocionais menos intensas; ii) na fase pós-diagnóstico, os pais de bebés com anomalia congénita apresentaram níveis superiores de sintomatologia psicopatológica e níveis semelhantes de qualidade de vida, por comparação a pais de bebés saudáveis; iii) desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé, observou-se uma melhoria da adaptação individual dos pais (menos sintomatologia psicopatológica e melhor qualidade de vida física), apesar de uma proporção de pais (15,2%) ter apresentado uma trajetória que se caracteriza por dificuldades continuadas de adaptação; iv) após o nascimento do bebé, as mães de bebés com anomalia congénita apresentaram níveis de confiança parental mais baixos do que as mães de bebés saudáveis, enquanto os pais de bebés com anomalia congénita

apresentaram níveis de confiança mais elevados do que os pais de bebês saudáveis; v) apesar de as mães apresentarem mais dificuldades de adaptação por comparação aos seus companheiros, foram também encontradas similaridades e influências mútuas na adaptação dos dois membros do casal; e vi) as variáveis clínicas, as representações de vinculação e o apoio social influenciaram as reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico e a adaptação subsequente.

Conclusões: Os resultados desta investigação apontam para a diversidade de resultados e percursos de (in)adaptação dos pais, quando ocorre um diagnóstico pré ou pós-natal de anomalia congênita. O momento de comunicação do diagnóstico e a fase pós-diagnóstico parecem caracterizar-se por maior disrupção e perturbação emocional nos pais, devido à rutura com as expectativas prévias acerca do bebê, à necessidade de integrar informação médica complexa e de lidar com exigências acrescidas de prestação de cuidados ao bebê. Ao longo do tempo, a maioria dos pais apresenta uma melhoria na sua adaptação, apesar de uma proporção apresentar dificuldades continuadas de adaptação. Os profissionais de saúde devem reconhecer esta heterogeneidade de resultados e percursos de (in)adaptação, adequando as suas estratégias de atuação. Os pais que apresentam mais dificuldades de adaptação devem ser sinalizados para intervenção psicológica estruturada. Além disso, os nossos resultados sugerem que a experiência paterna de adaptação ao diagnóstico de anomalia congênita possui especificidades que devem ser reconhecidas e mais bem investigadas. Por fim, os recursos da família (os recursos pessoais, como as representações de vinculação e o apoio social) parecem dever ser também um foco importante da intervenção psicológica com estes casais.

Abstract

Background: The pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly may be conceptualized as a stress-inducing event for parents, as they need to handle complex medical information about the congenital anomaly, the disruption of their expectations of a perfect and healthy infant, and the increased demands of childcare. Thus, this event may represent a risk factor for maladjustment to parenthood. Adopting a developmental and ecological approach and based on the specific contribution of family stress theories, this research focused on the (mal)adaptation of parents to the pregnancy and birth of an infant with a congenital anomaly. Specifically, this study aimed to characterize parents' emotional reactions to the disclosure of the diagnosis of a congenital anomaly, as well as parents' individual and parental adaptation, from the early post-diagnosis stage to six months post-birth. Moreover, this study also aimed to understand the adaptation process of these parents, by focusing on the role of different variables (clinical, individual resources, such as attachment representations, and social support).

Methods: This study has a longitudinal prospective design with two (for couples whose infant was diagnosed postnatally) or three assessment times (for the remaining couples): one month after the disclosure of the diagnosis of a congenital anomaly, one month and six months after the infant's birth. Sixty couples (60 mothers and 50 fathers) participated in the first assessment and 43 couples (43 mothers and 36 fathers) participated in the last assessment (experimental attrition: 28,3%). A control group (parents of healthy infants) was also recruited for comparison purposes. In addition to demographic and clinical data, information was gathered on the process of disclosure of the diagnosis, as well as on individual (psychopathological symptoms and quality of life) and parental (parenting stress, parental confidence and caregiving burden) adjustment indicators. Family resources (attachment representations and social support) were also assessed.

Results: We highlight the following results: i) two distinct patterns of emotional response to the disclosure of the diagnosis were found, one similar to the acute grief reactions pattern, and another characterized by less intense emotional reactions (lower disruption); ii) in the early post-diagnosis stage, parents of infants with a congenital anomaly showed higher levels of psychopathological symptoms and similar levels of quality of life, compared to parents of healthy infants; iii) from the early post-diagnosis stage to six months post-birth, there was an improvement in the individual adjustment of parents (lower psychopathological symptoms and higher physical quality of life), although a proportion of parents (15,2%) presented a trajectory characterized by continuing adjustment difficulties; iv) after the infant's birth, mothers of infants with congenital anomalies presented lower levels of confidence when compared with mothers of healthy infants, while fathers of infants with congenital anomalies presented higher confidence than parents of healthy infants; v) although mothers presented more adjustment difficulties when compared to fathers, similarities between the maternal and paternal experiences and mutual influences within the couple were

also found; and vi) clinical variables, attachment representations, and social support influenced parents' emotional reactions to the disclosure and their subsequent adjustment.

Conclusions: The results of this study showed the diversity of outcomes and pathways of parental (mal)adaptation, when parenting an infant with a congenital anomaly. The disclosure of the diagnosis and the early post-diagnosis stage seem to be characterized by greater emotional disturbance, due to the disruption of previous expectations about the infant and the need to integrate complex medical information and to deal with the increased demands of childcare. Over time, the majority of parents shows an improvement in their adaptation, although some parents presented continuous adjustment difficulties. Health professionals should recognize the heterogeneity of outcomes and (mal)adjustment pathways, fitting their strategies to the parental needs. Parents who have more adjustment difficulties should be targeted for psychological intervention. Furthermore, our results suggest that the paternal experience of adjustment to the infant's congenital anomaly should be better acknowledged and investigated. Finally, family resources (personal resources and social support) should also be a major focus for psychological intervention with these couples.

Nota Introdutória

As anomalias congénitas (AC; anomalias decorrentes de perturbações no desenvolvimento intrauterino e presentes no momento do nascimento; Crowley, 2010) são amplamente reconhecidas como uma das principais causas de mortalidade e morbidade infantil (Milunsky & Milunsky, 2010) e a sua prevalência total situa-se entre os 200 e os 300 casos por 10.000 nascimentos, segundo dados do European Surveillance of Congenital Anomalies (2012). O diagnóstico pré ou pós-natal de AC é habitualmente inesperado para os pais, fruto das expectativas positivas da sociedade acerca da gravidez e do escasso conhecimento experiencial dos pais acerca de AC (e.g., ausência de história familiar). Neste contexto, o diagnóstico de AC é experienciado como um acontecimento reprodutivo adverso; com frequência, os pais sentem dificuldade em integrar a notícia do diagnóstico nas experiências agradáveis e positivas que geralmente estão associadas à gravidez e ao nascimento do bebé (Bijma, Heide, & Wildschut, 2008).

Apesar de o diagnóstico pré ou pós-natal de AC ser um acontecimento do âmbito médico, é também importante compreender, utilizando a abordagem da Psicologia, **o processo de (in)adaptação dos pais** a este acontecimento. A ocorrência do diagnóstico tem um impacto na adaptação dos pais e, conseqüentemente, na forma como os pais lidam com a situação, nomeadamente na forma como compreendem a informação sobre a AC e tomam decisões (e.g., opções de tratamento), na interação e prestação de cuidados ao bebé ou na forma como interagem com os profissionais e serviços de saúde. Assim, a compreensão interdisciplinar dos fenómenos é essencial para delinear estratégias eficazes que promovam a saúde, a adaptação e o bem-estar do bebé com AC e da sua família.

Deste modo, no presente trabalho focamo-nos na experiência de parentalidade quando ocorre um diagnóstico pré ou pós-natal de AC, considerando o processo de adaptação dos pais desde o momento do diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé. Atendendo a isto, apesar de constituírem experiências relevantes, quer do ponto de vista clínico, quer do ponto de vista da investigação, as especificidades da experiência dos casais após a ocorrência de uma interrupção médica da gravidez ou de morte perinatal por anomalia congénita ultrapassam o âmbito deste trabalho.

A abordagem desenvolvimental e ecológica preconizada pela **Psicopatologia do Desenvolvimento** (Achenbach, 1990; Cicchetti, 2006, 2011; Sroufe, 1997) constituiu a grelha de leitura conceptual e de orientação das opções metodológicas deste trabalho. Partindo do conhecimento atual sobre o tópico, procurámos delinear uma investigação que, colmatando algumas das lacunas existentes, contribuísse para responder à questão: *“Como se caracteriza a adaptação à parentalidade, quando ocorre um diagnóstico pré ou pós-natal de AC, e quais os mecanismos e processos que influenciam essa adaptação?”*. Para além desta grelha conceptual ‘macro’, apoiámo-nos nos **modelos de stress familiar** – especificamente, no modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983) –, para compreender o processo de adaptação dos pais à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé.

A investigação que conduzimos é aqui apresentada sob a forma de seis estudos empíricos, que foram planificados para dar resposta a questões e objetivos específicos. Dos seis estudos empíricos que apresentamos, cinco encontram-se publicados ou no prelo em revistas internacionais com avaliação de pares (Estudos Empíricos I a IV e Estudo Empírico VI) e um encontra-se em processo de nova revisão, após ter sido aceite com revisões *minor* (Estudo Empírico V). Em anexo, apresentamos também um Estudo de Revisão da Literatura (*Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congénita do bebé: Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde*), que serviu de base à construção de algum material de recolha de informação utilizado na presente investigação.

O presente trabalho encontra-se organizado em quatro capítulos. O **Capítulo 1 | Enquadramento Teórico** constitui uma revisão da literatura que pretende informar acerca do conhecimento atual sobre o processo de (in)adaptação de pais de um bebé com AC. Neste capítulo, após alguns apontamentos sobre o conceito de AC, a sua etiologia e aspetos epidemiológicos, destacamos os principais desafios, para os pais, da ocorrência do diagnóstico de AC no bebé. De seguida, refletimos acerca do processo de (in)adaptação à parentalidade nestas circunstâncias. Por fim, apresentamos os principais resultados da investigação sobre este tópico, salientando as lacunas no conhecimento atual que orientaram a definição dos objetivos da nossa investigação.

O **Capítulo 2 | Apresentação dos Objetivos e da Metodologia da Investigação** corresponde à caracterização geral da investigação, em termos dos seus objetivos e das diferentes opções metodológicas (desenho do estudo, amostra, procedimentos e métodos de recolha), bem como da forma como os diferentes estudos empíricos se articulam entre si. Terminamos este capítulo com uma referência à forma como os princípios éticos foram tidos em conta, ao longo de todo o processo de investigação.

O **Capítulo 3 | Estudos Empíricos** engloba os seis estudos empíricos que constituem este trabalho. O Estudo Empírico I designa-se *Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly* e pretendeu caracterizar o tipo e a diversidade das

reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC, nomeadamente examinando a existência de diferentes padrões de resposta emocional à notícia do diagnóstico de AC no bebé.

O Estudo Empírico II (*Clinical determinants of parents' emotional reactions to the disclosure of a diagnosis of congenital anomaly*) procurou examinar os fatores de variabilidade das reações emocionais à notícia do diagnóstico de AC, focando-se no papel das variáveis clínicas (características da AC e história obstétrica), enquanto características definidoras do acontecimento indutor de *stress*, ou seja, da ocorrência do diagnóstico de AC no bebé.

No Estudo Empírico III, procurámos caracterizar a adaptação individual dos pais, um mês após a notícia do diagnóstico pré ou pós-natal de AC, por comparação a um grupo de pais de bebés saudáveis no mesmo período desenvolvimental. Este estudo designa-se *Parental psychological distress and quality of life after a prenatal or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy babies*.

O Estudo Empírico IV centrou-se no período pós-natal (um mês após o nascimento) e intitula-se *Parental psychological distress and confidence after an infant's birth: The role of attachment representations in parents of infants with congenital anomalies and parents of healthy infants*. Este estudo procurou examinar a adaptação individual e parental de pais de bebés com um diagnóstico de AC, por comparação a pais de bebés saudáveis, bem como investigar o papel das representações de vinculação na adaptação dos pais.

O Estudo Empírico V designa-se *The role of satisfaction with social support in perceived burden and stress of parents of six-month-old infants with a congenital anomaly: Actor and partner effects* e pretendeu conhecer os efeitos individuais e os efeitos do parceiro na relação entre a satisfação com o apoio social recebido e a adaptação parental, seis meses após o nascimento de um bebé com AC.

No Estudo Empírico VI (*Parenting an infant with a congenital anomaly: An exploratory study on patterns of adjustment from diagnosis to six months post-birth*) procurámos caracterizar a adaptação individual dos pais ao longo do tempo, desde o diagnóstico de AC até seis meses após o nascimento do bebé, focando-nos nos padrões individuais de adaptação.

Por fim, o **Capítulo 4 | Síntese e Discussão dos Resultados** procura integrar os principais contributos dos diferentes estudos empíricos desenvolvidos. Para além da discussão dos principais resultados desta investigação, salientamos também as suas principais limitações e algumas pistas para a investigação futura. Terminamos este capítulo com uma reflexão acerca das principais implicações do presente trabalho para a prática clínica.



Capítulo 1

Enquadramento Teórico

1. Anomalias congénitas: definição, etiologia e prevalência

Por AC, entendem-se as anomalias na estrutura ou função de uma ou mais partes do corpo, que são decorrentes de perturbações no desenvolvimento intrauterino (alterações da morfogénese durante o período embrionário ou fetal). As AC estão presentes no momento do nascimento, ainda que em alguns casos apenas sejam detetadas durante a infância ou na idade adulta (Crowley, 2010; Regateiro, 2007). A difusão e a integração, nas rotinas pré-natais, de um conjunto de técnicas de diagnóstico pré-natal¹ tem possibilitado a deteção de um vasto leque de AC, ainda durante o período pré-natal (Bijma et al., 2008). Quando o diagnóstico de AC ocorre no período pré-natal é possível, em alguns casos, e de acordo com o enquadramento legal vigente (Lei nº 16/2007, de 17 de abril), a opção pela interrupção médica da gravidez (IMG).

A *Classificação Internacional Estatística de Doenças e Problemas de Saúde Relacionados – 10ª Revisão (CID-10)* da Organização Mundial de Saúde (OMS; 1992) apresenta uma categorização das AC que inclui as anomalias nos diferentes órgãos e sistemas do corpo humano, bem como as anomalias cromossómicas (cf. Quadro 1). Outros autores consideram que as AC incluem ainda os erros inatos de metabolismo presentes no momento do nascimento (e.g., Czeizel, 2005; Dastgiri, Gilmour, & Stone, 2003).

Quadro 1 | Classificação das anomalias congénitas de acordo com a CID-10 (OMS, 1992)

Código CID-10	Classificação
Q00-Q07	AC do sistema nervoso
Q10-Q18	AC do olho, ouvido, face e pescoço
Q20-Q28	AC do sistema circulatório
Q30-Q34	AC do sistema respiratório
Q35-Q37	Lábio leporino e fenda palatina
Q38-Q45	Outras AC do sistema digestivo
Q50-Q56	AC dos órgãos genitais
Q60-Q64	AC do sistema urinário
Q65-Q79	AC do sistema músculo-esquelético
Q80-Q89	Outras AC
Q90-Q99	Anomalias cromossómicas

¹ Entre as técnicas de diagnóstico pré-natal, podem distinguir-se as técnicas não-invasivas, como a ecografia, que integram as rotinas pré-natais das grávidas, ou as técnicas invasivas (e.g., amniocentese) que são habitualmente utilizadas quando existem determinados fatores de risco (e.g., idade materna avançada; Sadler, 2009).

As AC podem ocorrer de forma *única/isolada* (ocorrência de uma AC num órgão ou função do corpo) ou *múltipla* (coocorrência de duas AC major não relacionadas, isto é, resultantes de erros na morfogénese diferentes; McLean, 2005). Relativamente ao significado clínico das AC, as classificações mais comuns distinguem entre as AC *major* (AC que podem ser letais, ou que são suficientemente graves para comprometer a esperança média de vida ou o funcionamento normal do indivíduo e que requerem intervenção médica; e.g., hérnia diafragmática) e AC *minor* (AC que não requerem intervenção médica, ou que podem ser corrigidas, sem consequências permanentes para o funcionamento normal do indivíduo; e.g., hérnia inguinal; McLean, 2005; Rajan, 2004). As AC *minor* são mais frequentes que as AC *major*, ocorrendo em cerca de 15% dos recém-nascidos (Sadler, 2009); apesar de não terem, em si mesmas, consequências para a saúde do indivíduo, estão frequentemente associadas a AC *major*, pelo que podem constituir pistas de diagnóstico importantes para a presença de AC *major* ou de síndromes (Rajan, 2004; Sadler, 2009).

No que respeita à **etiologia das AC**, podemos falar em AC de origem genética, de origem ambiental e de origem multifatorial (Czeizel, 2005; Guzmán, Fernández, & Herrera, 2004). As AC de *origem genética* estão relacionadas com dois tipos de alterações: as alterações cromossómicas e as alterações mendelianas. As alterações cromossómicas correspondem a alterações numéricas (e.g., aneuploidias) ou estruturais (e.g., deleções) dos cromossomas; entre as anomalias cromossómicas mais comuns, encontram-se a Trissomia 21 e a Síndrome de Turner. As alterações mendelianas correspondem ao compromisso num gene (*single-gene defect*) e são herdadas por transmissão autossómica dominante, autossómica recessiva ou ligada ao cromossoma sexual (e.g., fibrose quística, alguns erros inatos de metabolismo). A idade materna avançada (35 anos ou mais no momento do parto) e as relações de consanguinidade constituem dois fatores que podem contribuir para o aumento da prevalência total das AC de origem genética (Czeizel, 2005).

Relativamente às AC de *origem ambiental*, tem sido demonstrado que alguns agentes ambientais – agentes teratogénicos – são capazes de perturbar o normal desenvolvimento do embrião ou do feto (e.g., perturbação da diferenciação celular durante a morfogénese); as consequências destes processos disruptivos podem traduzir-se em AC. Entre os agentes teratogénicos incluem-se agentes infecciosos (e.g., rubéola, toxoplasmose), físicos (e.g., radiações ionizantes), químicos (e.g., consumo de álcool ou drogas), mecânicos (e.g., compressão intrauterina) ou doenças maternas, como a diabetes *mellitus* (Czeizel, 2005; Guzmán et al., 2004). A suscetibilidade aos agentes teratogénicos varia de acordo com o estágio desenvolvimental do embrião/feto no momento da exposição ao agente (o período embrionário é, globalmente, o período de maior suscetibilidade, mas existem diferentes períodos de suscetibilidade para diferentes AC), bem como com a duração e a dose de exposição ao agente teratogénico (Sadler, 2009).

Finalmente, as AC de *origem multifatorial* são as mais frequentes e resultam da interação entre fatores genéticos e ambientais, ou seja, da interação entre uma predisposição genética (alterações poligénicas herdadas) e fatores de risco ambientais. Assim, existe uma suscetibilidade genética individual para os agentes teratogénicos. Algumas das AC mais comuns (e.g., algumas cardiopatias congénitas; lábio leporino) pertencem a este grupo etiológico (Guzmán et al., 2004; Sadler, 2009). Não obstante alguma variabilidade nas percentagens reportadas na literatura, Sadler (2009) afirma que cerca de 40 a 60% das AC apresentam uma causa desconhecida. As causas genéticas são responsáveis por cerca de 15% das AC, as causas ambientais são responsáveis por cerca de 10% das AC e a combinação de fatores genéticos e ambientais é responsável por 20-25% das AC.

As AC constituem uma importante causa de mortalidade perinatal, morbilidade e deficiência na infância ou idade adulta, pelo que a **monitorização epidemiológica sistemática deste grupo de condições clínicas** assume-se como essencial (European Surveillance of Congenital Anomalies [EUROCAT], 2009b). No contexto europeu, o EUROCAT² constitui-se como o centro de registo epidemiológico de referência sobre as AC, com uma cobertura de registo de informação em 20 países da Europa. Portugal engloba este registo desde 1990, reportando ao EUROCAT dados referentes à região situada a Sul do Rio Tejo (cobertura nacional: 16.6%). Em Portugal existe também, sob alçada do Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, o Registo Nacional de Anomalias Congénitas [RENAC], um registo destinado a permitir a observação e a vigilância epidemiológica da ocorrência de casos de AC no contexto nacional.

Na Figura 1, apresentamos a prevalência de AC no período de 1990-2010 no conjunto dos países-membros do EUROCAT, incluindo a prevalência de nados-vivos com AC, de mortes fetais por AC, e de IMG por AC. A tendência verificada a nível global demonstra um aumento, seguido de uma redução nos últimos anos, da prevalência de nados-vivos com AC; esta redução é, contudo, acompanhada de um aumento da prevalência de IMG por AC. Em 2010, a prevalência estimada de nados-vivos com AC no conjunto dos países-membros do EUROCAT foi de 179,81 por 10.000 nascimentos, a prevalência de mortes fetais por AC foi de 5,38 por 10.000 nascimentos e a prevalência de IMG por AC foi de 49,16 por 10.000 nascimentos.

² O EUROCAT constitui uma rede de registo europeu sobre aspetos epidemiológicos das AC, que recolhe dados de diferentes países (no âmbito nacional ou regional) e utiliza múltiplas fontes de informação. São recolhidos dados sobre a prevalência das AC em nados-vivos, mortes perinatais e interrupções médicas da gravidez. Os principais objetivos deste registo são: i) a identificação de fatores de risco ambientais e grupos de alto-risco para a ocorrência de AC, promovendo oportunidades para a prevenção; ii) a avaliação de estratégias preventivas (e.g., suplemento de ácido fólico na peri-conceção); iii) a estimação do número de crianças e famílias que requerem serviços especializados de saúde ou outros; e iv) a avaliação do impacto dos serviços de diagnóstico e *screening* pré-natal (Euro-Peristat Project, 2008).

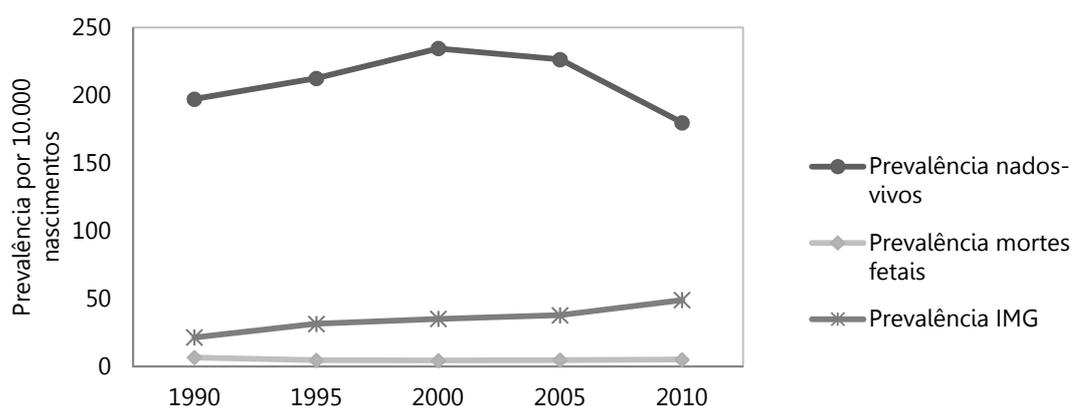


Figura 1 | Prevalência de anomalias congénitas no período 1990-2010 (registo combinado de todos os países-membros EUROCAT; EUROCAT, 2012)

No que respeita ao contexto português, os dados do RENAC relativos ao período 2008-2010 (Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, 2011) indicam que, no ano de 2010, foram recebidas 655 notificações de nascimentos com AC³, correspondentes ao registo de 1068 AC (prevalência total de AC de cerca de 104,99 por 10.000 nascimentos). De acordo com o RENAC, a baixa prevalência comparativamente aos valores médios registados pelo EUROCAT (cf. Figura 1; prevalência total de AC situa-se entre 200 e 300 por 10.000 nascimentos) está associada à subnotificação de casos pelos centros notificadores, pelo que estes valores devem ser interpretados com elevada cautela.

Os dados do RENAC mostram que, em 2010, 69,9% dos casos de AC notificados culminaram no nascimento de um nado-vivo e 26,6% dos casos numa IMG. Verificou-se ainda que, por comparação ao período anterior (2002-2007), ocorreu um aumento do número de notificações em que a gestação culminou numa IMG por AC, no período 2008-2010. Este padrão parece ser semelhante ao padrão observado no conjunto dos países-membros do EUROCAT.

Adicionalmente, em 2010, cerca de 43,8% das AC notificadas foram diagnosticadas durante o período pré-natal; a percentagem de deteção de AC no período pré-natal parece também ter aumentado no período 2008-2010, o que, de acordo com o RENAC, pode estar associado à organização e diferenciação dos Centros de Diagnóstico Pré-Natal (Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, 2011). Os dados referentes aos países-membros do EUROCAT referem a deteção pré-natal de cerca de 72% das anomalias cromossómicas e de 34% das anomalias não-cromossómicas, no período 2006-2010.

³ Atualmente, não existe legislação que obrigue à notificação de AC, em Portugal. A Direção Geral de Saúde recomenda a notificação de AC pelos serviços hospitalares, mas a adesão a esta notificação depende da concordância e disponibilidade dos serviços (Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, 2011). O aumento da notificação de casos de AC por parte dos serviços hospitalares continua a ser um dos objetivos do RENAC, tal como referido nas conclusões do relatório relativo ao período 2008-2010.

2. Os desafios da ocorrência de um diagnóstico de anomalia congénita no bebé durante o período pré ou pós-natal

A transição para a parentalidade tem sido perspectivada como uma transição desenvolvimental comum à maioria das pessoas, num determinado ponto do seu ciclo de vida individual e familiar (Canavarro, 2001; Cowan & Cowan, 1992). É um período pautado por grandes mudanças e reorganizações (e.g., relações interpessoais, identidade) para os indivíduos e famílias⁴ (Canavarro, 2001; Cowan & Cowan, 1992; Deave, Johnson, & Ingram, 2008; Moura-Ramos, 2006) e pela aprendizagem de novas competências, associadas ao desempenho dos novos papéis e tarefas (Mendes, 2007). Apesar de estas mudanças e aprendizagens poderem implicar potenciais riscos para a adaptação dos pais durante a transição para a parentalidade (e.g., Figueiredo & Conde, 2011; Jomeen, 2004; Moura-Ramos, 2006; Perren, Wyl, Bürgin, Simoni, & Klitzing, 2005), a maioria dos pais mostra, neste período, uma adaptação que pode ser considerada competente (Canavarro, 2009).

A ocorrência de um diagnóstico de AC no período pré-natal ou no período pós-natal é frequentemente um acontecimento não-esperado (isto é, que não faz parte do processo normal de desenvolvimento), que implica o confronto com um conjunto de desafios adicionais, para além dos desafios habituais e esperados associados à transição para a parentalidade (Messias, Gilliss, Sparacino, Tong, & Foote, 1995). Entre esses desafios, inclui-se a necessidade de lidar com: 1) o carácter inesperado do diagnóstico de AC e a disrupção das expectativas parentais de um bebé perfeito e saudável; 2) a informação nova e complexa sobre a AC; 3) as exigências adicionais de prestação de cuidados ao bebé com AC; e 4) a dimensão social da gravidez e da parentalidade quando o bebé tem uma AC. Assim, a ocorrência do diagnóstico de AC no bebé pode tornar a experiência de parentalidade mais exigente, constituindo-se como um *fator de risco* para a adaptação dos pais, quer após a notícia do diagnóstico, quer durante os primeiros meses de vida do bebé.

O carácter inesperado do diagnóstico de anomalia congénita e a disrupção das expectativas parentais de um bebé perfeito e saudável

O diagnóstico pré ou pós-natal de AC surge frequentemente de forma inesperada para os pais, por diversas razões. Em primeiro lugar, tem sido colocada, pela sociedade, uma ênfase crescente na perceção da gravidez como um processo saudável e sem complicações (Boyle, Vance, Najman, & Thearle, 1996), reforçando as expectativas parentais de vir a conceber uma

⁴ A revisão aprofundada da literatura acerca da transição para a parentalidade ultrapassa o âmbito deste trabalho. Para mais informações, consultar, por exemplo, Canavarro (2001), Cowan e Cowan (1992) e Moura-Ramos (2006).

criança saudável (Carolan & Hodnett, 2009; Kowalcek, Mühlhoff, Bachman, & Gembruch, 2002; Schuth, Karck, Wilhelm, & Reisch, 1994) e dificultando a aceitação de qualquer desvio neste processo.

Em segundo lugar, as expectativas dos pais acerca da saúde do bebé e do desfecho da gravidez atual são influenciadas pelo seu conhecimento experiencial (e.g., experiências reprodutivas prévias, conhecimento de outras famílias com bebés com AC; Seligman & Darling, 2007). Num estudo qualitativo realizado um mês após as mães terem recebido a notícia de um diagnóstico pré-natal de AC (Lalor & Begley, 2006), verificou-se que, antes de receberem a notícia do diagnóstico, todas antecipavam que o seu bebé seria saudável. Estas expectativas ancoravam-se na existência de experiências reprodutivas prévias positivas (e.g., existência de filhos saudáveis), na ausência de história familiar de AC e na avaliação positiva da gravidez atual (e.g., presença de sintomas comuns na gravidez, ausência de sintomas como dor ou sangramento). Segundo os autores, estes indicadores contribuem para aumentar a confiança parental na saúde do bebé e para a presunção de que o desenvolvimento do bebé está a decorrer normalmente (Lalor & Begley, 2006). De facto, apesar de a saúde do bebé ser uma das principais preocupações relatadas pelos pais durante a gravidez (Jomeen, 2004; Öhman & Waldenström, 2008), esta preocupação não se traduz na expectativa de que o bebé possa ter uma AC. Para além disso, as preocupações dos pais com a saúde do bebé são, habitualmente, objeto de normalização e tranquilização por parte da rede social (Seligman & Darling, 2007). Como referem Schutt et al. (1994), os pais experienciam “a diffuse fear of an abnormal baby that they denied or trivialized” (p. 126).

Em terceiro lugar, o carácter inesperado do diagnóstico de AC pode estar relacionado com a perceção parental acerca dos exames de diagnóstico realizados, nomeadamente a ecografia (procedimento não-invasivo de diagnóstico que integra a vigilância pré-natal). Para a maioria dos casais, a realização da ecografia durante a gravidez é percebida como um momento agradável e uma oportunidade para ver o bebé (Ähman, Lindgren, & Sarkadi, 2012; Ekelin, Svalenius, & Dykes, 2008; Mitchell, 2004; Öhman & Waldenström, 2008), mesmo tendo conhecimento de que a ecografia permite detetar malformações fetais (Lalor, Devane, & Begley, 2007). O facto de a ecografia estar integrada nas rotinas de vigilância pré-natal de todas as grávidas também contribui para um falso sentido de segurança dos pais (Lalor & Begley, 2006); no estudo de Mitchell (2004), apenas uma minoria das mulheres referiu ter sentido apreensão ou preocupação antes da realização da ecografia fetal. Por outro lado, a confiança dos pais na fiabilidade dos exames de diagnóstico pré-natal também parece contribuir para o carácter inesperado do diagnóstico de AC, quando este ocorre apenas no período pós-natal. Por exemplo, um estudo verificou que a realização de exames de diagnóstico pré-natal (sem que tenham sido identificados problemas médicos no bebé) contribuiu para reforçar o sentimento de confiança parental na saúde do bebé, acentuando o carácter inesperado do diagnóstico de AC no período pós-natal (Aite et al., 2003).

A informação nova e complexa sobre a anomalia congénita

Com a notícia do diagnóstico, os pais confrontam-se com a necessidade de lidar com a informação sobre a AC. Muitos pais não têm conhecimento prévio sobre a AC diagnosticada ao bebé, pelo que a informação que recebem é nova e complexa (Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006; Jedlicka-Köhler, Götz, & Eichler, 1996). Por exemplo, no estudo de Petrucelli, Walker e Schorry (1998) sobre a comunicação do diagnóstico pré-natal de anomalias cromossómicas sexuais, cerca de 80% dos pais referiram ter um conhecimento prévio pobre sobre este tipo de AC. Assim, o momento de comunicação do diagnóstico pode representar, para os pais, um *momento de aprendizagem*, sem que, muitas vezes, estejam reunidas as condições necessárias para potenciar a compreensão de informação complexa sobre a AC (Jedlicka-Köhler et al., 1996).

No momento em que o diagnóstico de AC é comunicado, a capacidade dos pais para compreender e reter a informação é influenciada pelo impacto emocional da notícia. De facto, as emoções intensas sentidas pelos pais (Aite et al., 2004), bem como a ocorrência de pensamentos intrusivos durante a comunicação do diagnóstico (e.g., preocupação com o futuro da criança; Jedlicka-Köhler et al., 1996) podem comprometer a manutenção da atenção e a capacidade de compreender e memorizar a informação⁵. Por exemplo, no estudo de Aite et al. (2004), a maioria dos pais referiu ter compreendido apenas 40 a 60% da informação apresentada na consulta de comunicação do diagnóstico pré-natal de AC.

A necessidade de informação acerca da AC é uma das necessidades mais valorizadas pelos pais que são confrontados com a notícia do diagnóstico (Pain, 1999). A procura ativa de informação contribui para dar sentido ao acontecimento e perceber a recuperação de controlo sobre a situação (De Rouck & Leys, 2009; Pain, 1999), que é abalado com a comunicação da notícia do diagnóstico. De forma congruente, a procura de informação sobre a AC favorece o processo de aceitação do diagnóstico e o ajustamento das expectativas parentais (Pain, 1999), bem como a perceção de envolvimento nos cuidados à criança (Hummelinck & Pollock, 2006). Do ponto de vista prático, a informação sobre a AC facilita a compreensão acerca das diferentes opções de tratamento e o conseqüente processo de decisão (Hummelinck & Pollock, 2006), bem como o acesso aos serviços que facilitem a prestação de cuidados à criança (Pain, 1999).

No entanto, apesar do reconhecimento da importância que a informação sobre a AC tem para os pais, alguns estudos têm mostrado que existem diferenças individuais nas suas

⁵ Alguns estudos procuraram avaliar as preferências e a satisfação dos pais relativamente à comunicação da informação sobre a AC. Os pais mostraram níveis superiores de satisfação quando a informação sobre a AC era veiculada de forma clara (Krahn, Hallum, & Kime, 1993; Starke, Wikland, & Möller, 2002; Strauss, Sharp, Lorch, & Kachakia, 1995) e menor satisfação quando os profissionais de saúde utilizavam terminologia médica (Krahn et al., 1993; Nusbaum et al., 2008). A utilização simultânea da perceção auditiva e visual (e.g., recurso a imagens) durante a comunicação do diagnóstico de AC (Aite et al., 2004) e a disponibilização de material escrito (Jedlicka-Köhler et al., 1996) foram também aspetos valorizados pelos pais. Adicionalmente, os pais mostravam-se mais satisfeitos quando lhes era dada, pelos profissionais de saúde, oportunidade para esclarecer dúvidas acerca da AC (Petrucelli et al., 1998).

necessidades de informação, após a notícia do diagnóstico. Muitos pais estão ambivalentes entre a vontade de querer saber toda a informação sobre a AC e o receio de receber essa informação (Hummelinck & Pollock, 2006). Num estudo que explorou o comportamento materno de procura de informação após a notícia de um diagnóstico pré-natal de AC, foram identificados dois estilos de procura de informação. Um grupo de mães caracterizava-se pela procura ativa de informação – *monitoring* (e.g., colocação de questões nas consultas, procura de outras fontes de informação); nestes casos, a informação constituía uma forma de lidar com a incerteza do diagnóstico de AC e aumentar o sentimento de controlo sobre a situação. Um outro grupo de mães evitava a procura ativa de informação – *blunting* (e.g., evitamento de informação adicional), considerando que receber mais informação do que aquela que julgavam necessária seria gerador de níveis de ansiedade elevados (Lalor, Begley, & Galavan, 2008). Assim, para que os seus efeitos sejam benéficos, a informação disponibilizada pelos profissionais de saúde aos pais⁶ deve ser adequada às suas necessidades (De Rouck & Leys, 2009; Hummelinck & Pollock, 2006; Lalor et al., 2008).

As exigências adicionais de prestação de cuidados ao bebé com anomalia congénita

Para além das tarefas habituais inerentes à prestação de cuidados ao bebé, os pais de um bebé com AC confrontam-se com exigências acrescidas de prestação de cuidados. Por um lado, desde o seu nascimento, as crianças com AC estão sujeitas a um maior número de intervenções cirúrgicas e de hospitalizações e a uma monitorização médica mais frequente (Davis, Brown, Bakeman, & Campbell, 1998; Mazer et al., 2008; Tak & McCubbin, 2002) do que as crianças saudáveis. Esta especificidade pode ter implicações nas rotinas familiares (e.g., restrição das atividades familiares, separação dos membros da família durante o período de hospitalização do bebé), bem como consequências financeiras para os pais (e.g., despesas médicas, dificuldades relacionadas com o emprego; Connor, Kline, Mott, Harris, & Jenkins, 2010; Davis et al., 1998). Para além disso, os períodos de hospitalização do bebé na Unidade de Cuidados Intensivos Neonatais [UCIN] são períodos particularmente exigentes do ponto de vista emocional para os pais, porque a separação física e as restrições na prestação de cuidados ao bebé são percecionadas como representando uma perda da identidade e do papel parental (e.g., Redshaw, 1997).

Por outro lado, mesmo quando o bebé com AC se encontra no domicílio e a prestação de cuidados decorre em ambiente familiar, podem existir dificuldades na realização de algumas tarefas. Por exemplo, diversos estudos têm reportado que os bebés com diferentes tipos de AC (e.g., anomalias do sistema digestivo, Faugli, Emblem, Bjornland, & Diseth, 2009; cardiopatias

⁶ No que respeita ao conteúdo da informação sobre a AC, os pais procuram obter dados sobre o diagnóstico e a descrição da AC, o seu prognóstico e opções de tratamento, bem como sobre os cuidados necessários no dia a dia da criança (Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006; Hummelinck & Pollock, 2006).

congénitas, Tandberg, Ystrom, Vollrath, & Holmstrom, 2010; lábio leporino e fenda palatina, Owens, 2008) apresentam dificuldades acrescidas na alimentação, tornando esta tarefa mais exigente para os pais, o que se pode traduzir num aumento da tensão familiar associada à prestação de cuidados ao bebé (Faugli et al., 2009).

Neste contexto, o **temperamento** e a reatividade emocional de bebés com AC têm também sido o foco de investigação de alguns estudos. Por exemplo, um estudo verificou que bebés com alguns tipos de cardiopatia congénita eram percecionados pelos pais como tendo pior temperamento do que bebés saudáveis (Torowicz, Irving, Hanlon, Sumpter, & Medoff-Cooper, 2010), embora não tenham sido encontradas diferenças a este nível entre pais de bebés com lábio leporino e pais de bebés saudáveis (Montirosso et al., 2012). Foi ainda demonstrado que os bebés com cardiopatia congénita apresentavam, com maior probabilidade do que bebés saudáveis, níveis elevados de reatividade emocional (Solberg et al., 2011; Stene-Larsen et al., 2010). Estas características podem tornar as tarefas de prestação de cuidados e a interação com o bebé mais exigentes para os pais, podendo refletir-se em níveis acrescidos de *stress* parental e baixa confiança parental (Solberg et al., 2011; Torowicz et al., 2010).

Para além das características do bebé, também os **comportamentos de interação pais-criança** têm sido analisados em pais de bebés com AC. Num estudo comparativo de mães de bebés com lábio leporino e mães de bebés saudáveis verificou-se que, aos dois meses de idade do bebé, as mães de bebés com lábio leporino apresentavam mais dificuldades de interação e níveis superiores de afetividade negativa na interação com o bebé (Montirosso et al., 2012). De forma semelhante, foi demonstrado que os comportamentos de interação de mães de bebés com AC corrigidas cirurgicamente no período pós-natal se diferenciavam significativamente dos comportamentos de interação das mães de bebés saudáveis: as mães de bebés com AC apresentavam significativamente menos comportamentos positivos (e.g., sensibilidade aos sinais da criança, estimulação da criança) e mais comportamentos negativos (e.g., intrusividade; Laing et al., 2010). Os autores sugerem que estes comportamentos negativos podem estar associados à sobreproteção da criança com AC, que é percecionada como mais vulnerável (Laing et al., 2010). Adicionalmente, verificou-se que as mães de bebés com problemas médicos reportavam mais dificuldade em compreender as pistas comportamentais do bebé, o que podia afetar a sua capacidade para interagir positivamente com ele (McKim et al., 1995).

Finalmente, os pais de bebés com AC têm ainda de lidar com a **incerteza que está associada ao diagnóstico de AC**, que se pode refletir a dois níveis: a um nível mais imediato, a incerteza sobre o diagnóstico e as opções de tratamento disponíveis, sobretudo quando este é conhecido ainda no período pré-natal e a informação médica disponível é limitada (Allen & Mulhauser, 1995; Jones, Statham, & Solomou, 2005); a um nível mais distal, a incerteza sobre o desenvolvimento e a qualidade de vida futura do bebé (Mazer et al., 2008; Messias et al., 1995). De facto, a este nível, alguns estudos reportaram que crianças com alguns tipos de AC têm uma probabilidade acrescida de apresentar atrasos de desenvolvimento (e.g., Laing, Walker, Ungerer, Badawi, & Spence, 2011). Contudo, Rempel, Harrison e Williamsom (2009) mostraram que os pais

de crianças com AC tendiam a não reconhecer a existência destes atrasos desenvolvimentais nos seus filhos; de acordo com os autores, isto traduz um processo de normalização do desenvolvimento da criança que visa ajudar os pais a diminuir a preocupação com a incerteza acerca do futuro (Rempel et al., 2009). De referir que este processo de normalização pode também ter um efeito nocivo, se inibir a procura de intervenção atempada e adequada às necessidades específicas da criança (Rempel et al., 2009).

A dimensão social da gravidez e da parentalidade quando o bebé tem uma anomalia congénita

No contexto social em que nos inserimos, a opção do casal pela parentalidade é muito valorizada pela sociedade e existe até alguma pressão social, a partir de determinado momento do ciclo de vida, para os casais terem filhos (Pezeshki, Zeighami, & Miller, 2005). A gravidez e o nascimento de um filho estão habitualmente associados a emoções positivas nos pais, que são partilhadas com familiares e amigos. Neste período, tende a iniciar-se um processo de abertura do sistema familiar ao mundo extrafamiliar (movimento centrífugo; Relvas, 1996), visível em aspetos como a partilha com a rede social da notícia da gravidez ou as visitas dos familiares e amigos para conhecer o bebé nos primeiros dias de vida. Quando ocorre um diagnóstico de AC no período pré ou pós-natal, verificam-se diferenças ao nível da interação dos pais com a rede social. Especificamente, o movimento de abertura da família ao mundo extrafamiliar, característico da transição para a parentalidade, parece dar lugar a um *movimento centrípeto* (Rolland, 1999), caracterizado por um maior isolamento da família.

Segundo Seligman e Darling (2007), **partilhar a notícia do diagnóstico de AC** com a rede social é percecionado pelos pais como uma tarefa particularmente exigente. Por um lado, os pais podem não querer falar sobre o assunto com familiares e amigos (Howard, 2006), sobretudo numa fase em que ainda estão a integrar a informação complexa sobre a AC (Seligman & Darling, 2007) ou em que ainda não têm muita informação disponível. Por exemplo, um estudo mostrou que 54% dos pais reportaram não ter conseguido responder satisfatoriamente às questões dos familiares sobre a AC (Jedlicka-Köhler et al., 1996), o que pode ilustrar as dificuldades de comunicação sobre este tópico.

Por outro lado, os pais têm de lidar com as reações e comentários da rede social à notícia do diagnóstico de AC. Esta notícia é, tal como para os pais, inesperada para os familiares e amigos, que podem reagir de diferentes formas. A investigação tem demonstrado que a maior parte dos elementos da rede social procura adotar uma postura compreensiva e empática (Johansson & Ringsberg, 2004; Seligman & Darling, 2007), ainda que os pais possam sentir dificuldade em lidar com alguns comentários proferidos com o intuito de os tranquilizar (e.g., 'vai ficar tudo bem'; Johansson & Ringsberg, 2004; Messias et al., 1995). Adicionalmente, outra parte

da rede social procura adotar uma postura de normalização da situação, agindo como se o bebé não tivesse uma AC, o que tende a ser interpretado pelos pais como falta de interesse pelo bebé; pode ainda haver outros familiares e amigos que optam por afastar-se, por terem dificuldade em saber que postura adotar (Johansson & Ringsberg, 2004).

Para além das dificuldades iniciais, os pais de bebés com AC vão-se confrontando, nos primeiros meses de vida do bebé, com outras dificuldades de interação com a rede social. Por um lado, devido às exigências acrescidas de prestação de cuidados (cf. ponto anterior), os pais podem ter menos oportunidades de interação com a rede social, diminuindo a ativação do apoio social por parte da mesma (Lawoko & Soares, 2003b). Por outro lado, por não quererem comunicar sobre o diagnóstico de AC ou por sentirem que a sua experiência é diferente da experiência comum de parentalidade, alguns pais optam por evitar o contacto com a rede social nos primeiros meses de vida do bebé (e.g., evitar passeios com o bebé na rua, evitar eventos sociais com amigos ou familiares, evitar participar em conversas sobre o tema da parentalidade; Kerr & McIntosh, 2000), aumentando o seu isolamento. Por último, pelos desafios com que se confrontam, os pais de bebés com AC possuem necessidades de apoio específicas – por exemplo, necessidades de informação sobre a AC – a que os membros da rede social podem não responder adequadamente; isto pode refletir-se numa sensação de isolamento, incompreensão e desesperança em relação ao futuro (Kerr & McIntosh, 2000; McKim et al., 1995) e diminuir a motivação dos pais para o envolvimento em situações de interação com a rede social.

3. O processo de (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita no bebé

O conceito de (in)adaptação à parentalidade

O conceito de adaptação é um conceito amplamente utilizado na área da Psicologia Clínica e da Saúde, apesar de alguma dificuldade na sua definição e operacionalização. De acordo com a perspetiva desenvolvimentista e ecológica em que assenta este trabalho, a adaptação bem-sucedida ou competente refere-se à capacidade do indivíduo de coordenar o seu funcionamento psicológico (cognitivo, afetivo e comportamental) e os recursos ambientais, para responder adequadamente aos desafios e exigências desenvolvimentais com que se confronta no presente e promover a adaptação futura (Masten, Burt, & Coatsworth, 2006; Soares, 2000).

Partindo desta conceptualização, a adaptação dos pais ao diagnóstico pré ou pós-natal de AC só pode ser entendida tomando como referência o período desenvolvimental específico em que os pais se encontram, ou seja, a transição para a parentalidade. Como salienta Canavarro (2001), a adaptação à parentalidade pode ser definida como “a capacidade de cuidar e educar uma criança, contribuindo para o seu desenvolvimento harmonioso e também para o seu próprio

desenvolvimento pessoal” (p. 45), ou seja, a capacidade dos pais de responderem adequadamente às exigências deste período desenvolvimental e promoverem o seu desenvolvimento e adaptação futura (Canavaro, 2001, 2009). No mesmo sentido, para os pais cujo bebê foi diagnosticado com uma AC, a **adaptação bem-sucedida à parentalidade** implica a capacidade de responder adequada e simultaneamente às exigências desenvolvimentais da transição para a parentalidade e às exigências adicionais associadas ao diagnóstico de AC, que anteriormente descrevemos.

A investigação empírica sobre a experiência de cuidar de uma criança com diagnóstico de AC ou deficiência⁷ privilegiou, até à década de 80 do século passado, uma abordagem focada nas dificuldades e necessidades da família, que assentava numa perspetiva determinista das consequências negativas desta experiência para a família (e.g., Ferguson, 2002; Kearney & Griffin, 2001; Stainton & Besser, 1998). A abordagem que seguimos neste trabalho (Cicchetti, 2006; Sroufe, 1997) afasta-nos dessa perspetiva determinista e reconhece a diversidade de experiências e vivências parentais; a ocorrência do diagnóstico de AC no bebê pode estar associada a diferentes resultados de (in)adaptação ao longo do tempo, uns marcados pela continuidade e outros marcados por mudanças nos percursos de (in)adaptação.

O contributo dos modelos de stress familiar para compreender o processo de (in)adaptação à parentalidade

Na determinação dos diferentes resultados e percursos de (in)adaptação dos pais à ocorrência de um diagnóstico de AC no bebê, estão envolvidos diferentes fatores que exacerbam (*fatores de vulnerabilidade*) ou reduzem (*fatores de proteção*) os efeitos negativos (Cicchetti, 2006; Luthar & Cicchetti, 2000; Rutter, 1990) dos desafios acrescidos associados ao diagnóstico de AC no bebê. Nas últimas décadas, tem-se recorrido ao contributo de diferentes modelos teóricos para compreender o processo e a diversidade de resultados de (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de AC no bebê; estes modelos salientam precisamente diferentes variáveis que podem influenciar a adaptação dos pais e que, por isso, podem operar como fatores/mecanismos de vulnerabilidade e proteção.

⁷ Apesar de se afastar do âmbito deste trabalho uma discussão sobre o conceito de deficiência, importa referir que a OMS o definiu recentemente como um ‘guarda-chuva’ conceptual e um fenómeno complexo, que reflete a interação entre as características do corpo da pessoa e do meio em que está inserida (World Health Organization, 2012), ou seja, que tem em conta não só as alterações nas funções ou estruturas do corpo (*impairment*), mas também as limitações de atividade e restrições de participação que essas alterações implicam.

Apesar de reconhecermos o contributo das diferentes perspetivas e modelos⁸, os modelos de *stress* familiar e, em específico, o **modelo ABC-X Duplo** (McCubbin & Patterson, 1983), constituem o referencial teórico para a nossa investigação. Esta opção teve por base duas razões. Em primeiro lugar, o facto de este modelo se enquadrar na abordagem desenvolvimental e ecológica que orienta este trabalho, ao considerar a variável tempo, a influência dos contextos (Boss, 2002) e o não-determinismo na forma como a família responde aos acontecimentos indutores de *stress*. Em segundo lugar, o foco colocado na resposta inicial de *stress* ou crise da família ao acontecimento indutor de *stress*, mas também na resposta de adaptação da família ao longo do tempo. Esta leitura é particularmente relevante no contexto da ocorrência de um diagnóstico de AC no bebé. Numa primeira fase, a família procura lidar com o carácter inesperado do diagnóstico e responder às suas exigências imediatas, o que se reflete numa resposta inicial de *stress*/crise familiar. Numa segunda fase, a família tenta recuperar o equilíbrio que foi perturbado pela ocorrência do diagnóstico de AC, procurando adaptar-se às exigências adicionais de cuidar de um bebé com AC. Na Figura 2, apresentamos, de forma esquemática, o modelo ABC-X Duplo.

De acordo com o modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983), o diagnóstico pré ou pós-natal de AC pode ser conceptualizado como um *acontecimento indutor de stress* [a], visto que possui características (acontecimento não-normativo, crónico, habitualmente inesperado e com grau variável de ambiguidade/incerteza) que são potencialmente indutoras de *stress* para a família (Boss, 2002). A **resposta inicial da família** à ocorrência do diagnóstico de AC não depende apenas das características deste acontecimento, mas também da interação entre a perceção familiar acerca da AC e os recursos existentes na família.

De facto, no momento em que o diagnóstico de AC no bebé é comunicado aos pais, estes começam a desenvolver, com base na informação médica que recebem e nas suas experiências prévias, uma *perceção/avaliação acerca da AC* [c], nomeadamente em termos da sua gravidade (Marshak, Seligman, & Prezant, 1999; Nusbaum et al., 2008). Uma perceção parental de maior gravidade da AC tem sido associada a níveis mais elevados de depressão, ansiedade e *stress* nos membros da família (Catlett, Miles, & Holditch-Davis, 1994; Franck, Mcquillan, Wray, Grocott, & Goldman, 2010; Shields-Poe & Pinelli, 1997), embora essa relação nem sempre tenha sido encontrada (e.g., Lefkowitz, Baxt, & Evans, 2010). A adaptação parental parece ser mais influenciada pela avaliação parental acerca do diagnóstico de AC do que por indicadores objetivos da gravidade da AC (Franck et al., 2010; Kronenberger & Thompson, 1992). De facto, a correlação entre os indicadores objetivos de gravidade e a perceção parental de gravidade do

⁸ Entre as diferentes perspetivas e modelos que oferecem um contributo para a compreensão do processo de (in)adaptação à parentalidade de um bebé com AC, incluem-se a perspetiva familiar sistémica de adaptação à doença crónica/deficiência (Rolland, 1999), a perspetiva ecológica (Kazak, 1989; Seligman & Darling, 2007), o modelo de *stress* e *coping* individual (Lazarus & Folkman, 1984) e os modelos de adaptação da criança e da família à doença crónica (Thompson et al., 1994; Thompson & Gustafson, 1996; Wallander & Varni, 1998).

diagnóstico é apenas moderada (Franck et al., 2010), sugerindo que outros fatores influenciam esta percepção.

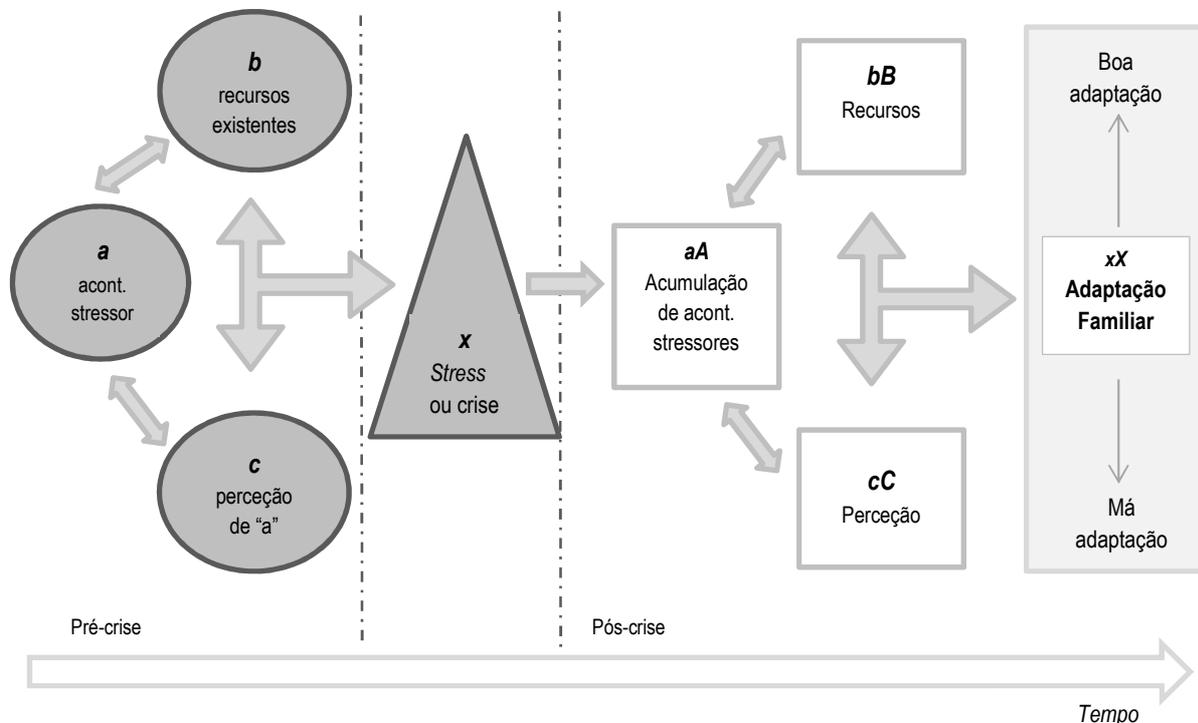


Figura 2 | Modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983; reproduzido com autorização dos autores)

Para além disso, quando o diagnóstico de AC é comunicado, e com base na sua percepção acerca da AC, os pais procuram ativar os *recursos existentes na família* [b], nomeadamente os recursos pessoais (e.g., representações de vinculação ou autoestima), os recursos familiares (e.g., coesão familiar) ou o apoio social (e.g., Berant, Mikulincer, & Florian, 2001; Doherty et al., 2009), que podem contribuir não só para reduzir o impacto das exigências associadas ao diagnóstico de AC, como também para ajudar a família a adaptar-se às mudanças que lhe são exigidas (Lavee, no prelo; Lavee, McCubbin, & Patterson, 1985). Assim, nos casais que percebem o diagnóstico de AC como mais ameaçador e/ou não têm ou não conseguem ativar os recursos necessários para lidar com as exigências associadas à sua ocorrência, a comunicação da notícia do diagnóstico de AC despoleta uma resposta inicial de *stress* ou mesmo de crise familiar, que se pode caracterizar, ao nível dos membros da família, por reações emocionais negativas intensas à notícia do diagnóstico e por perturbação do bem-estar físico e psicológico na fase pós-diagnóstico.

Após a resposta inicial da família à notícia do diagnóstico, os pais continuam a ser confrontados com um conjunto de outras exigências específicas associadas à AC (e.g., especificidades da prestação de cuidados ao bebê), para além das mudanças e reorganizações

características da transição para a parentalidade (Messias et al., 1995), que se podem constituir como fontes adicionais de *stress*, resultando na *acumulação de acontecimentos indutores de stress* [A]. A **capacidade de adaptação dos membros da família**, não só ao acontecimento indutor de *stress* inicial, mas também aos acontecimentos indutores de *stress* que vão surgindo ao longo do tempo, resulta, novamente, da interação entre o *significado* [C] que a família vai atribuindo à situação e os *recursos* [B] que a família e os seus membros vão conseguindo utilizar e desenvolver, em resposta à ocorrência do diagnóstico de AC (McCubbin & Patterson, 1983). Assim, compreender o papel do significado atribuído à situação e dos recursos existentes na (in)adaptação da família à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé assume particular relevância do ponto de vista clínico, pois permite delinear estratégias específicas de intervenção psicológica que promovam a adaptação bem-sucedida dos membros da família.

4. A (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita no bebé: resultados e lacunas da investigação

A resposta inicial da família: as reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de anomalia congénita e a adaptação na fase pós-diagnóstico

As **reações emocionais dos pais** à notícia do diagnóstico de AC no período pré ou pós-natal têm sido o foco de algumas investigações. De forma geral, tem sido documentado que os pais se recordam das circunstâncias da comunicação do diagnóstico e descrevem as suas reações emocionais com grande detalhe (Drotar, Baskiewicz, Irvin, Kennell, & Klaus, 1975). Os resultados dos estudos identificaram a presença de um conjunto de reações emocionais predominantemente negativas após a notícia do diagnóstico (e.g., choque, ansiedade, tristeza, culpa, raiva, desespero, frustração e vergonha; Aite, Zaccara, Nahom, et al., 2006; Chaplin, Schwitzer, & Perkoulidis, 2005; Drotar et al., 1975; Kerr & McIntosh, 1998; Petrucelli et al., 1998), que os pais reportaram como muito intensas (Lalor, Begley, & Galavan, 2009). Este conjunto de reações tem sido descrito por alguns autores como correspondendo a um padrão de reações agudas de luto (Chaplin et al., 2005; Statham, Solomou, & Chitty, 2000), que seria experienciado por todos os pais após a notícia do diagnóstico de AC.

No entanto, algumas evidências – nomeadamente os resultados de alguns estudos que reportam a existência, após a notícia do diagnóstico, de emoções positivas como esperança (Sommerseth & Sundby, 2010), que não se enquadram na caracterização habitual das reações agudas de luto –, têm apontado para a necessidade de conhecer melhor a variabilidade nas reações emocionais iniciais dos pais à notícia do diagnóstico de AC (Statham et al., 2000). Mais especificamente, o conhecimento atual não nos elucidar sobre se esta variabilidade se pode traduzir em diferentes padrões de resposta emocional à notícia do diagnóstico de AC; investigar

esta questão é de particular importância, não só porque a resposta inicial dos pais ao diagnóstico de AC pode influenciar o seu processo de adaptação subsequente (Taanila, Syrjälä, Kokkonen, & Järvelin, 2002), como também porque esta variabilidade pode refletir-se na necessidade de estratégias diferenciadas de atuação dos profissionais de saúde. Para além disso, a maioria dos estudos existentes apresenta opções metodológicas que também reforçam a necessidade de investigar melhor este tópico, de que são exemplo: i) estudos qualitativos, que não permitem avaliar a variabilidade na intensidade com que diferentes emoções foram experienciadas; ii) avaliação retrospectiva, considerando amplitudes de tempo muito diferentes entre a notícia do diagnóstico e o momento de avaliação; e iii) amostras compostas maioritariamente por mulheres, negligenciando a experiência paterna. Assim, no **Estudo Empírico I** deste trabalho, procurámos contornar algumas destas limitações metodológicas e contribuir para o conhecimento atual acerca das reações emocionais à notícia do diagnóstico de AC, através do foco na caracterização da sua diversidade, para ambos os géneros. Para além disso, dado o escasso conhecimento atual sobre a variabilidade das reações emocionais à notícia do diagnóstico de AC, é praticamente inexistente a informação acerca dos fatores que podem contribuir para a sua ocorrência; no **Estudo Empírico II**, procurámos examinar de que forma as variáveis clínicas (i.e., as características da AC e a história obstétrica), enquanto características definidoras do acontecimento indutor de *stress*, influenciam as reações emocionais dos pais à comunicação do diagnóstico de AC.

Para além das reações emocionais à notícia do diagnóstico, outras investigações têm-se focado na **adaptação individual dos pais na fase pós-diagnóstico**. Tendo em conta que a adaptação num determinado período influencia a adaptação futura (Cicchetti, 1993), conhecer a adaptação dos pais na fase pós-diagnóstico (isto é, no primeiro mês após o diagnóstico de AC) pode ter importantes implicações do ponto de vista clínico, ao permitir identificar os pais que apresentam mais dificuldades de adaptação e que, por isso, têm maior probabilidade de apresentar comprometimento na adaptação futura (Skari et al., 2006).

A fase pós-diagnóstico caracteriza-se pelo confronto inicial dos pais com alguns dos desafios/exigências que anteriormente descrevemos, o que se pode refletir negativamente na sua adaptação. A maioria dos estudos sobre este tópico utiliza como indicador de adaptação individual a presença de sintomatologia psicopatológica (ansiosa e depressiva). Os resultados sugerem que os pais cujo bebé foi diagnosticado com uma AC no período pré-natal apresentam níveis acrescidos de sintomatologia psicopatológica após o diagnóstico (Brisch et al., 2003; Kaasen et al., 2010; Kemp, Davenport, & Pernet, 1998; Leithner et al., 2004; Rychick et al., 2012), quando comparados com a população geral ou com um grupo de grávidas e seus companheiros, cujo bebé não tem problemas de saúde. Resultados semelhantes foram encontrados quando o diagnóstico de AC ocorreu no período pós-natal (Aite et al., 2003; Brosig, Whitstone, Frommelt, Frisbee, & Leuthner, 2007), por comparação à população geral. No entanto, os estudos que utilizam como referencial de comparação a população geral não permitem perceber qual o impacto específico da ocorrência do diagnóstico de AC e qual aquele que se deve às mudanças

inerentes à transição para a parentalidade, justificando a necessidade de investigar melhor esta questão. Outros estudos identificaram ainda sintomas característicos de perturbação aguda de *stress* na fase pós-diagnóstico, sobretudo quando associados à hospitalização do bebé (e.g., Lefkowitz et al., 2010).

Por oposição, são muito escassos os estudos que conhecemos sobre a adaptação dos pais na fase pós-diagnóstico que utilizam como indicadores de adaptação dimensões de funcionamento positivo dos indivíduos, como a qualidade de vida. A qualidade de vida tem sido um indicador de adaptação crescentemente valorizado na área da saúde, por contemplar uma visão subjetiva do bem-estar do indivíduo (Vaz-Serra, 2010), nas suas múltiplas dimensões de vida (e.g., dimensão física, dimensão psicológica, relações sociais). Na perspetiva da OMS, a qualidade de vida pode ser definida como:

“...the individuals’ perception of their position in life in the context of the culture and value systems in which they live in relation to their goals, expectations, standards and concerns. It is a broad ranging concept affected in a complex way by the persons’ physical health, psychological state, level of independence, social relationships and their relationship to salient features of their environment” (The WHOQOL Group, 1994, p. 28).

Para além da escassez de estudos, os resultados dos estudos que se focam na qualidade de vida ou em conceitos similares, como a satisfação com a vida, não são consistentes (Dale et al., 2012; Mazer et al., 2008), constituindo uma lacuna da investigação nesta área. Face a isto, o conhecimento atual sobre a adaptação dos pais na fase pós-diagnóstico carece de uma abordagem compreensiva e multidimensional e que permita distinguir o impacto decorrente do diagnóstico pré ou pós-natal de AC daquele que é característico das mudanças inerentes ao período de transição para a parentalidade. Foi com o objetivo de contribuir para essa abordagem que conduzimos o **Estudo Empírico III** considerando, por um lado, indicadores de adaptação que avaliam dimensões negativas (sintomatologia psicopatológica) e positivas (qualidade de vida) do funcionamento individual e, por outro lado, um grupo de pais de bebés saudáveis no mesmo período desenvolvimental, como referencial de comparação.

A resposta de adaptação da família: a adaptação dos pais nos primeiros meses de vida do bebé

Independentemente do estado de saúde de um bebé, os seus primeiros meses de vida são habitualmente críticos para todos os pais, devido ao conjunto de mudanças e de aprendizagens inerentes ao papel parental; quando ocorre o diagnóstico de AC, os pais têm também de lidar com as exigências específicas associadas ao diagnóstico (cf. ponto 2).

A maioria das investigações existentes tem-se focado nas consequências a longo prazo, para a família, de ter um filho com um diagnóstico de AC (Santos, 1998; Seligman & Darling, 2007), sendo menos frequentes os estudos que se focam na adaptação dos pais durante os primeiros meses de vida do bebê, especialmente se considerarmos outros indicadores de adaptação para além da sintomatologia psicopatológica. Apesar de os estudos realizados com pais de crianças mais velhas com AC nos poderem oferecer alguma informação útil para compreender a adaptação dos pais nos primeiros meses de vida de um bebê com AC, a generalização dos resultados deve ser cautelosa, devido às exigências específicas deste período desenvolvimental. Além disso, as opções metodológicas de alguns destes estudos – nomeadamente os critérios de inclusão (e.g., as idades das crianças com AC apresentam uma grande variação, chegando a incluir intervalos dos 0 aos 20 anos, Lawoko & Soares, 2002, 2003a) e o foco quase exclusivo na experiência materna –, também comprometem a generalização e a utilidade dos resultados obtidos.

Adaptação individual

Após o nascimento do bebê, os pais de bebês com um diagnóstico de AC têm apresentado níveis superiores de sintomatologia psicopatológica, quando comparados com pais de bebês saudáveis (Berant et al., 2001; Skari et al., 2006) e com a população geral (Brosig et al., 2007). De forma similar, cerca de seis meses após o nascimento do bebê, Skari et al. (2006) verificaram que os pais de bebês com AC continuavam a apresentar níveis superiores de sintomatologia psicopatológica, por comparação a pais de bebês saudáveis. Num outro estudo, Pelchat et al. (1999) também encontraram resultados semelhantes: os pais de bebês com Síndrome de Down ou com cardiopatias congénitas apresentavam, cerca de seis meses após o nascimento do bebê, níveis superiores de sintomatologia psicopatológica, por comparação com pais de bebês saudáveis. No entanto, não foram encontradas diferenças nos níveis de sintomatologia psicopatológica de pais de bebês com lábio leporino e de pais de bebês saudáveis (Pelchat et al., 1999).

Considerando a sintomatologia psicopatológica clinicamente significativa, Doherty et al. (2009) observaram uma prevalência de sintomas clinicamente significativos em 33% das mães e em 18% dos pais de bebês com AC, cerca de três meses após o nascimento do bebê. De forma similar, Brosig et al. (2007) verificaram que cerca de 35% dos pais de bebês com AC apresentavam pontuações clinicamente significativas de sintomatologia psicopatológica, seis meses após o nascimento do bebê. Resultados semelhantes (37,3%) foram encontrados em mães de crianças mais velhas com AC (idade média das crianças = 1,7 anos; Davis et al., 1998), sugerindo que, ao longo do tempo, pelo menos uma proporção de pais de bebês com AC apresenta dificuldades de adaptação merecedoras de atenção clínica.

No que respeita à qualidade de vida, como já referimos, são muitos escassos os estudos que se focam em pais de bebés com AC. Mazer et al. (2008) verificaram que estes pais apresentavam pontuações de qualidade de vida significativamente inferiores no domínio mental, mas não no domínio físico, seis semanas e seis meses após o nascimento do bebé, quando comparadas com os valores de população geral. Resultados semelhantes foram encontrados cerca de 12 meses após o nascimento do bebé apenas para as mães; nessa avaliação, os pais apresentavam valores de qualidade de vida semelhantes aos da população geral (Gischler & Mazer, 2008).

Adaptação parental

A literatura sobre **confiança parental** (isto é, a perceção dos pais acerca da sua capacidade para prestar cuidados ao bebé, identificar e responder adequadamente às necessidades do bebé e sentir satisfação com o papel parental; Hess, Teti, & Hussey-Gardner, 2004; Zahr, 1993) tem demonstrado que este indicador de adaptação influencia as práticas parentais, nomeadamente a interação com a criança e a sensibilidade parental, bem como o próprio ajustamento da criança (para uma revisão, consultar Jones & Prinz, 2005; Leahy-Warren & McCarthy, 2011).

A presença de problemas médicos no bebé tem sido apontada na literatura como um fator que influencia negativamente os níveis de confiança parental (Freeman, 2006; Miles, Holditch-Davis, Burchinal, & Brunssen, 2011; Singer, Davillier, Bruening, Hawkins, & Yamashita, 1996; Spielman & Taubman-Ben-Ari, 2009; Zahr, 1993). Por outro lado, os níveis de confiança parental também influenciam a forma como os pais lidam com os desafios e exigências colocados pela presença de problemas médicos no bebé, ou seja, os pais com níveis superiores de confiança parental parecem conseguir ativar mais os recursos necessários e lidar melhor com as exigências que lhes são colocadas (Teti, O'Connell, & Reiner, 1997). No entanto, a generalidade destes estudos inclui pais de bebés com uma diversidade de problemas médicos (e.g., problemas médicos decorrentes da prematuridade, Zahr, 1993), não sendo do nosso conhecimento estudos que se tenham focado exclusivamente na confiança parental de pais de bebés com um diagnóstico de AC, sobretudo considerando simultaneamente as experiências materna e paterna. Pelos motivos que referimos, a confiança parental constitui-se como um indicador de adaptação particularmente relevante, quer para a investigação, quer para a prática clínica, no contexto da parentalidade de bebés com AC. Nesse sentido, um dos objetivos do **Estudo Empírico IV** foi a caracterização da confiança parental, bem como da sintomatologia psicopatológica, após o nascimento de um bebé com AC, por comparação a um grupo de pais de bebés saudáveis. O foco na confiança parental enquanto indicador positivo do funcionamento dos pais no desempenho do seu papel parental reforça a abordagem compreensiva e multidimensional da adaptação à parentalidade que adotamos neste trabalho. Além disso, tendo em conta o papel dos recursos

personais dos membros da família na resposta de adaptação ao acontecimento indutor de *stress* (McCubbin & Patterson, 1983), procurámos ainda examinar, neste estudo, o papel das *representações de vinculação no adulto* – aqui conceptualizadas como um recurso interno para lidar com experiências adversas ou stressantes (Mikulincer & Florian, 1995, 1998) –, na confiança parental e na sintomatologia psicopatológica de pais de bebés com AC e de pais de bebés saudáveis. No Estudo Empírico IV, apresentamos uma revisão da literatura mais aprofundada sobre a influência deste recurso pessoal na adaptação à parentalidade.

Adicionalmente, as exigências acrescidas de prestação de cuidados com que os pais de bebés com AC se confrontam podem repercutir-se na perceção de sobrecarga associada à prestação de cuidados e também nos níveis de *stress* parental.

A **sobrecarga associada à prestação de cuidados** (*caregiving burden*) pode ser definida como o conjunto de mudanças específicas na vida do indivíduo que resultam das exigências de prestação de cuidados à criança (Fatheringham, Skelton, & Hoddinott, 1972) ou, por outras palavras, como o impacto negativo, nos vários domínios de vida do indivíduo, de cuidar de uma criança com doença crónica ou deficiência (Stein & Jessop, 2003). Este indicador tem sido crescentemente utilizado em estudos com pais de crianças com diferentes problemas médicos (Green, 2007), o que decorre do reconhecimento de que as medidas gerais de adaptação (e.g., sintomatologia psicopatológica, *stress* parental) podem não ser suficientemente sensíveis para avaliar as especificidades do impacto de cuidar de uma criança com um problema médico, como uma AC (Albuquerque, Fonseca, Pereira, Nazaré, & Canavarro, 2011).

No que respeita aos resultados das investigações, os estudos com pais de crianças pequenas com AC (entre seis meses a dois anos de idade) têm verificado que os pais percecionam um impacto negativo ou sobrecarga nos domínios financeiro, individual e familiar/social (Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999; Kramer, Baethge, Sinikovic, & Schliephaje, 2007). Outros estudos, com pais de crianças mais velhas, têm demonstrado que estes também percecionam um impacto negativo ou sobrecarga associados à prestação de cuidados de uma criança com AC (Baker, Owens, Stern, & Willmot, 2009; Chen et al., 2007; Pruthi & Mohta, 2010), que se reflete, por exemplo, no domínio financeiro (problemas económicos) e nas relações sociais (e.g., diminuição das atividades de lazer; Brandon, 2007).

Por outro lado, o ***stress* parental** pode ser definido como a resposta mental negativa que resulta da avaliação parental da disparidade entre as exigências associadas ao papel parental e os recursos existentes para atender a essas exigências (Abidin, 1992, 1995). Enquanto níveis de *stress* parental adequados constituem uma motivação que auxilia os pais no desempenho do seu papel parental, níveis de *stress* muito elevados podem constranger este desempenho, refletindo-se num comportamento parental disfuncional (Abidin, 1992).

As investigações existentes sobre o *stress* parental em pais de crianças com AC têm demonstrado que estes apresentam, quando comparados com os dados normativos da população geral, pontuações significativamente superiores de *stress* parental, bem como uma maior proporção de pontuações de *stress* clinicamente significativas (Pope, Tillman, & Snyder, 2005; Speltz, Arnsden, & Clarren, 1990; Uzark & Jones, 2003). No entanto, outros estudos não encontraram diferenças nos níveis de *stress* parental de pais de crianças com AC e de pais de crianças saudáveis (Carey, Nicholson, & Fox, 2002; Darke & Goldberg, 1994; Vrijmoet-Wiersma, Ottenkamp, Roozendaal, Grootenhuis, & Koopman, 2009). Estes estudos têm sido predominantemente conduzidos, como já referimos, com pais de crianças mais velhas.

Pelchat et al. (1999) conduziram um estudo para avaliar o *stress* parental de pais de bebés de seis meses de idade com diferentes tipos de AC. Neste estudo, os autores verificaram que os pais de bebés com Síndrome de Down e os pais de bebés com cardiopatia congénita apresentavam níveis de *stress* parental significativamente superiores aos de pais de bebés saudáveis; no entanto, não foram encontradas diferenças nos níveis de *stress* parental apresentados por pais de bebés com lábio leporino e pais de bebés saudáveis (Pelchat et al., 1999). É possível que a ausência de diferenças entre estes dois grupos se deva ao reduzido poder estatístico do estudo para detetar efeitos pequenos (devido à sua amostra pequena). Pela relevância destes indicadores na caracterização da adaptação parental e pela escassez de estudos sobre este tópico com pais de crianças mais novas com AC, a sobrecarga associada à prestação de cuidados e o *stress* parental foram utilizados no **Estudo Empírico V** deste trabalho. Uma das formas de conhecer a adaptação parental nos primeiros meses de vida do bebé é examinar os fatores que a influenciam; assim, neste estudo empírico, e à luz do modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983), focámo-nos no papel de outro recurso da família – o *apoio social* – na adaptação de pais de bebés com AC. A revisão da literatura mais relevante acerca da influência do apoio social na adaptação parental é apresentada no Estudo Empírico V.

Adaptação conjugal

O diagnóstico de AC no bebé afeta todo o sistema familiar (Seligman & Darling, 2007) pelo que se reconhece que este acontecimento pode influenciar, para além do subsistema individual e do subsistema parental, o subsistema conjugal – especificamente, a adaptação conjugal dos pais. Contudo, as investigações sobre este tópico focam-se apenas em amostras de pais de crianças mais velhas, com diferentes diagnósticos de AC ou deficiência, e oferecem-nos resultados inconsistentes. Enquanto alguns estudos encontraram níveis inferiores de qualidade da relação conjugal nos pais de crianças com deficiência, por comparação a pais de crianças saudáveis (Kersh, Hedvat, Hauser-Cram, & Warfield, 2006; Witt, Riley, & Coiro, 2003), outros não encontraram diferenças significativas (Gravidia-Payne & Stoneman, 2006; Povee, Roberts, Bourke, & Leonard, 2012; Seltzer, Greenberg, Floyd, Pettee, & Hong, 2001).

No contexto específico das AC, conhecemos apenas dois estudos que investigaram a adaptação conjugal de mães de bebés com um diagnóstico de cardiopatia congénita. Num dos estudos, foram encontrados níveis inferiores de adaptação conjugal após o diagnóstico pré-natal de AC, por comparação a grávidas saudáveis (Rychick et al., 2012). No outro estudo, verificou-se a existência de uma associação negativa significativa entre gravidade do diagnóstico de AC e adaptação conjugal, cerca de um ano após o diagnóstico de AC (Berant, Mikulincer, & Florian, 2003).

Numa meta-análise sobre o tópico, Risdal e Singer (2004) concluíram que cuidar de uma criança com um diagnóstico de deficiência tem um impacto negativo na adaptação conjugal; contudo, esse impacto é pequeno e muito inferior ao postulado nas conceções mais deterministas. Nesta meta-análise, os autores reportam ainda um aumento de cerca de 6% na taxa de divórcio de pais de crianças com deficiência (Risdal & Singer, 2004). A este respeito, outros autores (McCoyd, Akincigil, & Paek, 2010) concluíram que a estabilidade da relação conjugal não é automaticamente comprometida pelo nascimento de uma criança com um diagnóstico de AC ou deficiência:

“... a certain degree of stress (i.e., the child’s diagnosis with a disability and some level of need that the caregivers feel capable of meeting) works in protective ways for the relationship (possibly by bringing the adults closer together due to a shared goal but also possibly due to a sense that one has fewer options for separating). It seems that after a certain threshold of severity and caregiver burden, the likelihood of dissolution increases, theoretically due to higher levels of individual and couple stressors” (p. 262).

Para além de a condição médica da criança ter impacto na adaptação conjugal, importa também salientar que a qualidade da relação conjugal se tem revelado como um importante fator de influência, quer na adaptação individual após a notícia do diagnóstico de AC no período pré-natal (Rychick et al., 2012), quer na adaptação parental (e.g., *stress* parental, confiança parental), mesmo controlando a influência das características da criança (Kersh et al., 2006). Neste contexto, e apesar de a adaptação conjugal não ter sido o foco direto deste trabalho, torna-se essencial reconhecer as influências recíprocas entre esta dimensão de adaptação e a adaptação individual e parental.

Percursos ou trajetórias de (in)adaptação

Como temos referido, no contexto da adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé, importa conhecer não só a adaptação dos pais em momentos ‘isolados’, mas também os seus percursos de (in)adaptação; para isso, é necessário desenvolver estudos que, do ponto de vista metodológico, traduzam a natureza contínua deste processo, isto é, estudos prospetivos longitudinais. Contudo, quando consideramos a adaptação dos pais de

bebés com AC no momento do diagnóstico e durante os primeiros meses após o nascimento do bebé, notamos que esses estudos são escassos e focam-se apenas na adaptação individual; apesar da inegável importância de examinar os percursos ou trajetórias considerando outras dimensões de adaptação (e.g., parental, conjugal), não temos conhecimento de estudos prospetivos longitudinais sobre este tópico.

De facto, o estudo conduzido por Brosig et al. (2007) foi o único que, do nosso conhecimento, procurou caracterizar a variabilidade da sintomatologia psicopatológica dos pais de bebés com AC desde o momento do diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé. Neste estudo, os autores verificaram que os níveis de sintomatologia psicopatológica dos pais se mantinham estáveis desde o diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé, quando o diagnóstico ocorrera no período pré-natal; já quando o diagnóstico ocorrera no período pós-natal, diminuía significativamente ao longo do tempo (Brosig et al., 2007). Contudo, a limitação relacionada com o reduzido poder do estudo para detetar diferenças estatisticamente significativas (devido à amostra pequena) e o facto de o estudo ter sido conduzido apenas com pais de bebés com um tipo de AC (cardiopatía congénita) tornam patente a necessidade de investigar melhor esta questão.

Os restantes estudos longitudinais que procuraram analisar a adaptação dos pais ao longo do tempo, utilizando como indicadores de adaptação a sintomatologia psicopatológica (Pinelli et al., 2008; Skreden et al., 2010) ou a qualidade de vida (Gischler & Mazer, 2008; Mazer et al., 2008), consideraram como primeiro momento de avaliação o período após o nascimento do bebé (entre poucos dias e seis semanas pós-nascimento), independentemente de o diagnóstico de AC ter ocorrido no período pré-natal ou no período pós-natal, e apontam para uma melhoria da adaptação individual ao longo do tempo. Segundo Skreden et al. (2010), os níveis de sintomatologia psicopatológica de pais de bebés com AC com correção cirúrgica neonatal mantiveram-se elevados nas primeiras seis semanas após o nascimento do bebé, apresentando uma redução seis meses após o nascimento do bebé. Numa outra publicação com base neste estudo longitudinal, o mesmo grupo de autores (Skari et al., 2006) tinha já demonstrado que os níveis de sintomatologia psicopatológica apresentados pelos pais poucos dias após o nascimento do bebé se revelaram preditores dos níveis de sintomatologia psicopatológica seis meses após o nascimento do bebé, sugerindo alguma continuidade na adaptação ao longo do tempo (Skari et al., 2006). Finalmente, também Pinelli et al. (2008) conduziram um estudo longitudinal com pais de bebés recém-nascidos admitidos na UCIN (incluindo pais de bebés com AC e pais de bebés com outros problemas médicos), acompanhando-os durante o primeiro ano de vida do bebé. Nesse estudo, os autores verificaram que, no momento de admissão do bebé na UCIN, 65% das mães e 45% dos pais apresentavam níveis de depressão com relevância clínica, tendo esses valores diminuído significativamente cerca de três meses após o nascimento do bebé (sendo de 16% entre as mães e 12% entre os pais); estes valores mantiveram-se na avaliação realizada 12 meses após o nascimento do bebé (Pinelli et al., 2008).

No que respeita à qualidade de vida, Mazer et al. (2008) encontraram pontuações semelhantes cerca de seis semanas e seis meses após o nascimento de um bebé com AC, para ambos os géneros. Num outro estudo conduzido pelo mesmo grupo de autores (Gischler & Mazer, 2008), verificou-se, que nos primeiros dois anos após o nascimento do bebé com AC, apenas os pais mostravam mudanças positivas nas componentes física e mental da qualidade de vida, enquanto para as mães as melhorias nos níveis de qualidade de vida apenas ocorriam na avaliação realizada aos cinco anos de vida do bebé com AC. Estes resultados sugerem que os pais, por comparação às mães, apresentam uma recuperação mais rápida do funcionamento positivo, após o diagnóstico de AC no bebé (Gischler & Mazer, 2008).

Face à escassez de estudos, e procurando contribuir para o conhecimento atual sobre o percurso de (in)adaptação dos pais de bebés com AC, conduzimos o **Estudo Empírico VI** deste trabalho. Neste estudo, utilizando uma abordagem compreensiva e multidimensional da adaptação, procurámos caracterizar a adaptação individual dos pais, desde o momento do diagnóstico de AC até seis meses após o nascimento do bebé. Para além disso, os poucos estudos existentes informam-nos acerca da adaptação individual dos pais de bebés com AC ao longo do tempo, enquanto grupo, mas não nos dão informação acerca da diversidade de trajetórias ou percursos de (in)adaptação dos pais após a ocorrência do diagnóstico de AC, isto é, dos percursos individuais de continuidade e mudança na (in)adaptação ao longo do tempo. Este aspeto é particularmente relevante se considerarmos que diferentes percursos individuais de (in)adaptação ao diagnóstico de AC podem traduzir-se em diferentes implicações ao nível da atuação dos profissionais de saúde, nomeadamente no que se refere à sinalização para intervenção psicológica dos pais que tendem a apresentar um percurso continuado de inadaptação. Na tentativa de contribuir para colmatar essa lacuna do conhecimento atual, foi também objetivo do nosso Estudo Empírico VI caracterizar os diferentes percursos de (in)adaptação observados no grupo de pais de bebés com AC.

Diferenças de género e a não-independência da (in)adaptação dos dois membros do casal

Apesar do crescente interesse em conhecer a experiência paterna na área da transição para a parentalidade (Condon, Boyce, & Corkindale, 2004), os estudos sobre a (in)adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé têm-se focado predominantemente na experiência materna. Esta tendência parece justificar-se pelo facto de, independentemente da condição de saúde do bebé/criança, as mães assumirem o papel principal na prestação de cuidados (Hunfeld et al., 1999; Katz-Wise, Priess, & Hyde, 2010; Santos, 1998) e serem habitualmente a figura parental mais próxima do bebé (Gischler & Mazer, 2008), sobretudo durante os primeiros meses após o seu nascimento.

De facto, durante a transição para a parentalidade, mães e pais tendem a assumir papéis de género mais tradicionais, que influenciam a forma como se adaptam ao longo do tempo: enquanto as mães tendem a assegurar as principais tarefas de prestação de cuidados associadas ao bebé e as tarefas domésticas, os pais tendem a focar-se nas responsabilidades referentes às necessidades financeiras da família (Katz-Wise et al., 2010). Assim, devido ao foco predominante das investigações na experiência materna, existem lacunas na investigação no que respeita à caracterização da (in)adaptação paterna à parentalidade, quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé; por exemplo, são escassos os estudos que se focam exclusivamente na adaptação masculina (Clark & Miles, 1999). Com o objetivo de colmatar essas lacunas, nos diferentes **estudos empíricos** que conduzimos procurámos sempre conhecer simultaneamente a experiência materna e a experiência paterna de adaptação à ocorrência de um diagnóstico de AC no bebé, bem como as especificidades de género, associadas aos diferentes papéis assumidos por mães e pais durante a transição para a parentalidade.

No contexto da adaptação à parentalidade de pais de bebés com AC, as investigações que têm considerado simultaneamente as experiências materna e paterna apontam para a existência de maiores dificuldades de adaptação nas mães, por comparação aos pais. Estas dificuldades de adaptação maternas traduzem-se, por exemplo, em níveis superiores de sintomatologia psicopatológica (Skari et al., 2006), níveis inferiores de qualidade de vida (Mazer et al., 2008), bem como níveis superiores de *stress* parental (Pelchat et al., 1999) ou sobrecarga associada à prestação de cuidados ao bebé (Hunfeld et al., 1999). Alguns estudos, no entanto, não encontram diferenças de género nos indicadores de adaptação (e.g., Brosig et al., 2007). Contudo, muitos destes estudos exploraram as diferenças de género considerando homens e mulheres como sujeitos independentes, isto é, sem reconhecer a não-independência dos elementos do casal (Cook & Kenny, 2005), o que constitui uma limitação importante. O reconhecimento da não-independência dos membros do casal⁹ implica uma mudança na forma como se exploram as diferenças de género; especificamente, mais do que conhecer as diferenças de género *per se*, interessa conhecer as diferenças de género na adaptação de mulheres e homens do mesmo casal, ou seja, entre mães e pais que estão expostos aos mesmos fatores de influência (i.e., têm uma experiência similar no que respeita à notícia do diagnóstico de AC; lidam diariamente com o mesmo bebé). Este aspeto foi também tido em conta nos diferentes estudos empíricos desta investigação.

⁹ A não-independência dos membros do casal/díade significa que estes partilham algo em comum, isto é, que as características e resultados dos dois membros do casal são mais semelhantes do que características e resultados de dois membros que não constituem um casal. Podem ser descritas quatro fontes de não-independência entre os membros do casal: 1) efeito de composição (os membros da díade são similares mesmo antes de constituírem a díade; no caso dos casais, essa similaridade constituiu um fator para a formação da díade); 2) o efeito do parceiro (uma característica ou comportamento de uma pessoa afeta os resultados/adaptação do parceiro); 3) influências mútuas (os resultados/adaptação dos dois membros do casal influenciam-se mutuamente, num processo de *feedback*); e 4) destino comum (os dois membros do casal são expostos aos mesmos fatores causais; Kenny, Kashy, & Cook, 2006).

Para além disso, o reconhecimento da não-independência dos elementos do casal implica simultaneamente a necessidade de considerar a existência de influências mútuas no casal e de efeitos do parceiro (*partner* ou *crossover effects within the couple*), isto é, o facto de as características e a (in)adaptação de um membro do casal influenciarem as características e a (in)adaptação do outro membro do casal, e vice-versa (Cook & Kenny, 2005). Por exemplo, em estudos com pais de crianças mais velhas foi encontrada alguma evidência de que o bem-estar individual de cada um dos membros do casal influencia os níveis de *stress* parental do outro membro, em pais de crianças com autismo (Hastings, 2003) e com deficiência intelectual (Gerstein, Crnic, Blacher, & Baker, 2009). No entanto, do nosso conhecimento, estes efeitos do parceiro e de influências mútuas no casal não foram explorados no contexto da adaptação à parentalidade quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé. Com o objetivo de contribuir para colmatar esta lacuna do conhecimento atual, no Estudo Empírico V examinámos não só a influência do apoio social recebido na adaptação de cada um dos pais, como também a influência do apoio social recebido na adaptação parental do(a) companheiro(a) (*efeitos do parceiro*) e as influências mútuas entre os membros do casal na adaptação parental.

A perceção de contribuições positivas associadas à experiência de cuidar de um bebé com AC

O abandono das perspetivas mais deterministas e patológicas acerca do impacto negativo da experiência de cuidar de uma criança com AC na adaptação familiar (Ferguson, 2002) possibilitou, a partir da década de 80, a emergência de um corpo de investigações (Behr, Murphy, & Summers, 1992; Turnbull, 1985) que identificou a perceção de contribuições positivas e de benefícios associados à experiência de parentalidade de uma criança com um diagnóstico de deficiência. Apesar de este tópico não ter sido focado na parte empírica deste trabalho, consideramos que a sua relevância no contexto da (in)adaptação de pais de bebés ou crianças com um diagnóstico de AC ou deficiência justifica uma breve referência neste capítulo.

Os estudos conduzidos sobre este tópico têm identificado perceções de contribuições positivas a vários níveis: i) crescimento pessoal e desenvolvimento de qualidades pessoais, como paciência ou compaixão (Behr et al., 1992; Scorgie & Sobsey, 2000); ii) coesão e unidade familiar (Bayat, 2007; Behr et al., 1992; Scorgie & Sobsey, 2000) e envolvimento com a rede social e a comunidade (Behr et al., 1992; Scorgie & Sobsey, 2000; Taunt & Hastings, 2002); iii) mudanças na visão acerca do mundo (redefinição de objetivos e prioridades na vida; valorização das pequenas coisas; foco no presente; Bayat, 2007; Kausar, Jevne, & Sobsey, 2003; King et al., 2006); e iv) desenvolvimento do sistema de crenças espirituais (Bayat, 2007; Behr et al., 1992).

Para além disso, a investigação tem demonstrado que a perceção de contribuições positivas associadas à experiência de cuidar de uma criança com um diagnóstico de deficiência

ocorre independentemente da perceção de dificuldades no funcionamento individual e parental decorrentes da mesma experiência (Hastings, Beck, & Hill, 2005; Mak & Ho, 2007). De facto, alguns autores salientam a ambivalência que está intrínseca à vivência dos pais de crianças com um diagnóstico de deficiência; a criança é simultaneamente uma fonte de alegria/orgulho e de sofrimento (Kearney & Griffin, 2001) ou, como diz Larson (1998):

“The embrace of paradox was the management of the internal tension of opposing forces between loving the child as he or she was and wanting to erase the disability... and between maintaining hopefulness for the child’s future while being given negative information and battling their own fears” (p. 873).

Como salienta Larson (2010), a perceção parental de contribuições positivas pode resultar da procura de significados alternativos para as suas experiências de prestação de cuidados (e.g., reatribuições positivas, procura de benefícios) ou constituir uma forma de os pais recuperarem o sentimento de controlo das circunstâncias e readquirirem um significado para a vida (King et al., 2006). Adicionalmente, a perceção de contribuições positivas está associada à necessidade de os pais manterem a esperança e uma visão otimista do futuro, que permita à família perspetivar os passos a seguir e mobilizar os recursos necessários (Kearney & Griffin, 2001; King et al., 2006), bem como aceitar o diagnóstico da criança (Kausar et al., 2003).



Capítulo 2

Apresentação dos Objetivos e da Metodologia da Investigação

Neste capítulo, começaremos por descrever os objetivos gerais da investigação que aqui apresentamos, bem como as opções metodológicas inerentes à sua concretização. O presente trabalho foi desenvolvido no âmbito do projeto de investigação "*Transição para a parentalidade quando ocorre um diagnóstico de anomalia congénita no bebé: Reações ao diagnóstico, adaptação individual e parental*", integrado na linha de investigação *Relações, Desenvolvimento e Saúde* do Instituto de Psicologia Cognitiva, Desenvolvimento Vocacional e Social da Universidade de Coimbra (Unidade de I&D da Fundação para a Ciência e Tecnologia).

A parte empírica deste trabalho organiza-se em seis estudos empíricos, que constituem um recorte do projeto de investigação mais lato. Pretendemos, aqui, proporcionar uma visão global do projeto de investigação e oferecer alguma compreensão sobre a forma como os diferentes estudos se articulam entre si. Para além desta apresentação geral, as opções metodológicas específicas de cada estudo empírico (e.g., amostra, desenho do estudo, análise de dados) serão descritas, em secção própria.

1. Objetivos da investigação

No capítulo anterior, fomos identificando algumas das lacunas do conhecimento atual sobre o processo de (in)adaptação à parentalidade perante um diagnóstico de AC no bebé, que procurámos colmatar nos diferentes estudos empíricos. Para essas lacunas que apontámos, contribuíram as opções metodológicas de muitos estudos, nomeadamente:

- ✘ *Foco na adaptação dos pais de crianças mais velhas com diagnóstico de AC:* Apesar da evidência de que as primeiras reações dos pais ao diagnóstico de AC (reações emocionais e adaptação na fase pós-diagnóstico) podem influenciar a sua adaptação futura (Taanila et al., 2002), poucos estudos se focaram na adaptação dos pais no período após o diagnóstico pré-natal ou pós-natal de AC, negligenciando as especificidades deste período desenvolvimental (transição para a parentalidade);

- ✘ *Foco quase exclusivo na adaptação materna:* A maioria das investigações centrou-se apenas na adaptação materna, negligenciando-se a importância de conhecer a adaptação paterna e os mecanismos de influência mútua na adaptação dos membros do sistema familiar;

- ✘ *Operacionalização do conceito de adaptação:* A maioria das investigações operacionalizou a adaptação considerando apenas indicadores de funcionamento

negativo do indivíduo, como a presença de sintomatologia psicopatológica. De facto, tem sido negligenciada uma abordagem mais compreensiva da adaptação dos pais ao diagnóstico de AC na criança, que considere simultaneamente indicadores de funcionamento negativo e positivo (e.g., qualidade de vida, confiança parental);

✕ *Desenho transversal da maioria dos estudos:* O conhecimento sobre a adaptação dos pais ao diagnóstico de AC no bebé ao longo do tempo (padrões de continuidade e mudança) e sobre os mecanismos e processos subjacentes a essa adaptação é escasso, sobretudo quando consideramos o período específico da transição para a parentalidade.

Para além destes aspetos, a maioria dos estudos existentes utilizou amostras de outros contextos socioculturais (e.g., anglo-saxónico), pelo que importa também conhecer o impacto do diagnóstico pré-natal ou pós-natal de AC na adaptação dos pais, tendo em conta a nossa realidade sociocultural¹⁰.

Tendo por base todos estes aspetos, a investigação que aqui apresentamos teve como **objetivo geral** conhecer a (in)adaptação dos pais à gravidez e ao nascimento de um filho, quando ocorreu um diagnóstico de AC no período pré ou pós-natal. Deste objetivo geral decorreram três **objetivos específicos**:

- 1) Estudar o impacto emocional, nos pais, da notícia do diagnóstico pré- ou pós-natal de AC;
- 2) Caracterizar a adaptação individual e parental de pais de um bebé com uma AC, desde 1 mês após a notícia do diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé:
 - a) Comparar a adaptação de pais de um bebé com uma AC com a adaptação dos pais de um bebé saudável, no mesmo período desenvolvimental;
 - b) Investigar diferenças de género na adaptação de pais de um bebé com uma AC;
 - c) Examinar os processos de influência mútua, entre os membros do casal, na adaptação de pais de um bebé com uma AC;
 - d) Analisar as trajetórias de (in)adaptação à parentalidade, desde um mês após a notícia do diagnóstico de AC até seis meses após o nascimento do bebé, avaliando os padrões de continuidade e mudança na adaptação;
- 3) Investigar o papel de diferentes fatores (e.g., clínicos, recursos pessoais, apoio social) nas reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC e na adaptação individual e parental subsequente.

¹⁰ Tal como preconizado pelas perspetivas ecológicas, as variáveis do contexto mais lato em que a família se insere também influenciam o processo de adaptação familiar (Seligman & Darling, 2007). De entre estas variáveis, podemos destacar algumas que podem constituir especificidades do nosso contexto sociocultural e que, por isso, tornam importante a realização de investigações sobre este tópico no nosso contexto: i) a organização dos serviços de saúde materno-infantil em Portugal (Direção Geral de Saúde, 2001); ii) a legislação existente [e.g., IMG (Lei nº 16/2007 de 17 de abril)]; e iii) o contexto socioeconómico atual, entre outros.

Nesta investigação, e de acordo com a abordagem desenvolvimental e ecológica do presente trabalho (Carter, Marakovitz, & Sparrow, 2006; Cummings, Davies, & Campbell, 2000), o conceito de (in)adaptação foi operacionalizado atendendo a dois níveis (adaptação individual e adaptação parental – adaptação relacionada com a díade pais-crianças) e as dimensões negativas (e.g., sintomatologia psicopatológica) e positivas (e.g., confiança parental) do funcionamento do indivíduo. Partindo das lacunas identificadas e dos objetivos delineados para a investigação, foram conduzidos seis estudos empíricos, cada um deles apresentado sob a forma de artigo. Os objetivos específicos de cada um dos estudos empíricos são apresentados no Quadro 2.

Quadro 2 | Objetivos específicos da investigação (Estudos Empíricos)

Estudo Empírico	Objetivos específicos
I	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Caracterizar as reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC no bebé e examinar a existência de diferentes padrões de resposta emocional à notícia do diagnóstico; ✘ Investigar se as reações emocionais à notícia do diagnóstico de AC no bebé influenciam a presença de sintomatologia psicopatológica um mês após o diagnóstico, para mães e pais.
II	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Examinar o papel das variáveis clínicas nas reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC no bebé; ✘ Examinar a existência de congruência, entre os membros do casal, nas reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC no bebé.
III	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Caracterizar o ajustamento dos pais (sintomatologia psicopatológica e qualidade de vida) um mês após a notícia de um diagnóstico pré- ou pós-natal de AC no bebé, por comparação a um grupo de pais de bebés saudáveis, no mesmo período desenvolvimental.
IV	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Caracterizar o ajustamento de pais de bebés com um diagnóstico de AC (sintomatologia psicopatológica e confiança parental) um mês após o nascimento do bebé, por comparação a um grupo de pais de bebés saudáveis; ✘ Investigar o papel das representações de vinculação no adulto no ajustamento de pais de bebés com AC e no ajustamento de pais de bebés saudáveis (efeito moderador do grupo).
V	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Investigar os efeitos da satisfação com o apoio social recebido (da família e amigos) no ajustamento (stress parental e sobrecarga) do próprio e no ajustamento do parceiro (efeitos do parceiro), seis meses após o nascimento do bebé com AC.
VI	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Caracterizar o ajustamento de pais de bebés com AC (sintomatologia psicopatológica e qualidade de vida), desde o momento do diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé; ✘ Identificar padrões de continuidade e mudança no ajustamento de pais de bebés com AC, ao longo do tempo.

Nota

Apesar de não corresponder a um objetivo da investigação, num primeiro momento, desenvolvemos um artigo de revisão da literatura, focado nas reações parentais ao diagnóstico de AC no bebê, que apresentamos em anexo (Estudo de Revisão da Literatura; cf. Anexo). A revisão da literatura apresentada neste artigo consubstanciou-se como uma importante base para a construção de algumas fichas de recolha de informação, como apresentaremos detalhadamente no ponto 2.3.

2. Opções metodológicas

2.1. Desenho da investigação

A investigação que aqui apresentamos assenta num desenho prospetivo longitudinal, procurando acompanhar os casais desde o momento do diagnóstico de AC no bebê (no período pré ou no período pós-natal) até seis meses após o seu nascimento. Especificamente, a recolha de informação ocorreu em dois (quando o diagnóstico de AC ocorreu no período pós-natal) ou três momentos (quando o diagnóstico de AC ocorreu no período pré-natal): *momento 1* (M1) – um mês após o diagnóstico de AC no bebê; *momento 2* (M2) – um mês após o nascimento do bebê¹¹; *momento 3* (M3) – seis meses após o nascimento do bebê. Tendo em conta o segundo objetivo específico desta investigação, um grupo de pais de bebês saudáveis (grupo de controlo) foi também avaliado em três momentos temporalmente semelhantes (M1 – durante a gravidez, cerca de 20 semanas de gestação; M2 – um mês após o nascimento do bebê; M3 – seis meses após o nascimento do bebê). Na Figura 3, apresentamos esquematicamente os momentos de avaliação dos diferentes grupos.

¹¹ Para o grupo de pais cujo diagnóstico de AC ocorreu no período pós-natal o M1 (1 mês após o diagnóstico) e o M2 (1 mês após o nascimento do bebê) coincidem temporalmente, pelo que correspondem a um momento único de avaliação.

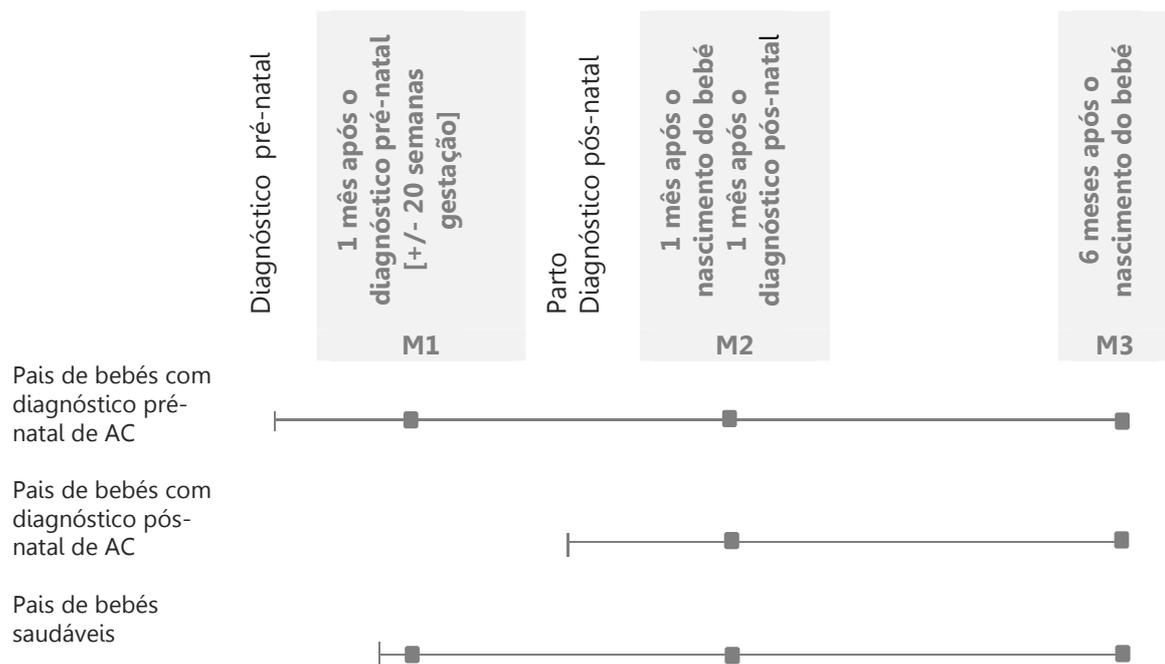


Figura 3 | Desenho da investigação: Momentos de avaliação

Tendo em conta os objetivos da presente investigação, dos seis estudos empíricos que aqui apresentamos, quatro correspondem a recortes da investigação com um desenho transversal (Estudos Empíricos I, II, III e V) e dois correspondem a recortes da investigação com um desenho prospetivo longitudinal (Estudos Empíricos IV e VI).

2.2. Participantes e procedimentos de recolha da amostra

Nesta secção, apresentamos informação referente à amostra global, nomeadamente no que respeita aos procedimentos necessários para a sua recolha. A amostra foi recolhida nos Serviços de Obstetrícia e Neonatologia da Maternidade Doutor Daniel de Matos e no Serviço de Cardiologia Pediátrica¹² do Hospital Pediátrico, ambos pertencentes ao Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, EPE. A recolha de amostra decorreu entre setembro de 2009 e fevereiro de 2012.

¹² No Serviço de Cardiologia Pediátrica do Hospital Pediátrico, foi recolhida uma parte dos participantes do grupo clínico (pais de bebés com um diagnóstico de cardiopatia congénita); os restantes participantes do grupo clínico e do grupo de controlo foram contactados nos Serviços de Obstetrícia e Neonatologia da Maternidade Doutor Daniel de Matos.

Com vista ao cumprimento dos objetivos da investigação, a amostra global foi constituída por dois grupos: um grupo de pais de bebés com um diagnóstico pré ou pós-natal de AC (**grupo clínico**) e um grupo de pais de bebés saudáveis (**grupo de controlo**). Para o recrutamento dos participantes de cada um dos grupos, foram estabelecidos critérios de inclusão, que são apresentados no Quadro 3.

Quadro 3 | Critérios de inclusão para o grupo clínico e para o grupo de controlo

Critérios de inclusão gerais	
<ul style="list-style-type: none"> ✘ Idade igual ou superior a 18 anos. ✘ Nível de compreensão da língua Portuguesa que permitisse o preenchimento do protocolo de avaliação. ✘ Estar, naquele momento, a vivenciar o período de gravidez ou o período pós-natal. 	
Critérios de inclusão específicos para o grupo clínico	Critérios de inclusão específicos para o grupo de controlo
<ul style="list-style-type: none"> ✘ Ocorrência, há cerca de um mês, de um diagnóstico pré- ou pós-natal de AC no bebé, sem que os casais tenham optado, quando possível, pela interrupção médica da gravidez. 	<ul style="list-style-type: none"> ✘ Existência de um bebé saudável (isto é, sem que tenha sido identificado, até ao momento, um diagnóstico de AC ou de outro problema médico).

Adicionalmente, foram definidos os seguintes **critérios de exclusão** da investigação: i) não ocorrência de morte perinatal, devido à AC ou devido a outras causas; ii) preenchimento dos questionários com uma percentagem de não-respostas (*missings*) superior a 20% do total de perguntas que compunham os questionários; e iii) não preenchimento de um dos momentos de avaliação (para os estudos empíricos longitudinais).

Procedimento de recolha da amostra

O contacto inicial com os participantes e o primeiro momento de avaliação

No que respeita ao **grupo clínico**, o primeiro contacto com os participantes foi realizado pela equipa médica, cerca de um mês após o diagnóstico de AC. Como referimos, o momento de contacto inicial com os participantes foi distinto para os pais cujo bebé foi diagnosticado durante o período pré-natal e para os pais cujo bebé foi diagnosticado no período pós-natal. Quando o diagnóstico ocorreu no período pré-natal, o contacto com os pais foi realizado no final de uma consulta de vigilância obstétrica (e.g., Consulta de Patologia do Desenvolvimento); quando o diagnóstico ocorreu no período pós-natal, o contacto com os pais foi realizado, habitualmente, no final de uma consulta médica do bebé ou do período de internamento hospitalar.

Nesse contacto inicial, a equipa médica informou todos os pais que preenchiam os critérios de inclusão para a presente investigação (amostragem consecutiva), que esta estava a ser conduzida com o objetivo geral de conhecer a adaptação individual e parental ao diagnóstico pré- ou pós-natal de AC, e solicitou aos pais a autorização para serem contactados pela equipa de investigadores, para uma explicação mais pormenorizada dos objetivos da investigação e da forma de participação na mesma. Todos os pais que deram a sua autorização foram posteriormente contactados pelos investigadores.

Os investigadores conduziram uma breve entrevista com o casal (ou apenas com a mãe, caso o pai não estivesse presente), na qual foram apresentados aos pais os objetivos da investigação, os papéis dos investigadores e dos participantes. Entre outros aspetos, foram dadas algumas informações sobre a participação no estudo (e.g., contacto dos participantes em diferentes momentos, sendo o primeiro contacto presencial e os restantes por correio; possibilidade de preencher os questionários em casa, sem necessidade de deslocações adicionais ao hospital e sem custos; garantia de confidencialidade). Os casais que aceitaram participar na investigação preencheram e assinaram o formulário de consentimento informado.

Seguidamente, os investigadores disponibilizaram aos pais duas versões semelhantes do protocolo de avaliação correspondente ao primeiro momento de avaliação (uma para a mãe e outra para o pai), forneceram instruções sobre o seu preenchimento (e.g., inexistência de respostas certas ou erradas; preenchimento separado pelos dois membros do casal) e mostraram-se disponíveis para o esclarecimento de qualquer dúvida existente. Finalmente, foi solicitado aos participantes que devolvessem os questionários preenchidos na consulta médica seguinte ou, em alternativa (caso não existisse consulta médica agendada no período de um mês), num envelope previamente selado disponibilizado para o efeito.

No que diz respeito ao **grupo de controlo**, os participantes que preenchiam os critérios de inclusão foram contactados diretamente pelos investigadores, no dia da consulta de Obstetrícia, antes da sua realização (amostragem consecutiva). O procedimento de contacto com os participantes do grupo de controlo foi semelhante ao descrito anteriormente para o grupo clínico (entrevista inicial, consentimento informado, entrega dos questionários e sua devolução).

O contacto com os participantes no segundo e terceiro momentos de avaliação

À exceção dos casais do grupo clínico cujo diagnóstico de AC no bebé ocorreu no período pós-natal (o M1 e o M2 são coincidentes), os restantes casais (grupo clínico – diagnóstico pré-natal; grupo de controlo) foram novamente contactados cerca de um mês após o nascimento do bebé (M2). Apenas foram contactados os participantes que devolveram preenchidos os questionários referentes ao primeiro momento de avaliação. Neste segundo contacto, os

protocolos de avaliação para os dois membros do casal foram enviados por correio, juntamente com um envelope selado para a sua devolução, e com uma carta onde eram lembrados os principais objetivos da investigação e as instruções gerais de participação.

Finalmente, os participantes do grupo clínico e do grupo de controlo foram novamente contactados cerca de seis meses após o nascimento do bebé (M3), tendo sido utilizado um procedimento semelhante ao descrito para o M2. Apenas foram contactados os participantes que devolveram preenchidos os protocolos de avaliação correspondentes ao anterior momento de avaliação.

Participação no estudo e atrito experimental

A Figura 4 apresenta uma representação esquemática da participação do **grupo clínico** ao longo dos diferentes momentos de avaliação.

Foram inicialmente contactados 82 casais com critérios para pertencer ao grupo clínico. Destes, dez casais recusaram participar no estudo e 12 casais não devolveram preenchidos/devolveram com preenchimento incompleto os questionários correspondentes ao primeiro momento de avaliação (taxa de participação: 73.2%). Como se verifica na Figura, 60 casais participaram no M1, sendo que em dez destes casais, apenas as mulheres preencheram os questionários (percentagem de resposta do sexo masculino: 83.3%). A taxa de atrito experimental de M1 para M2 foi de 22.0% e de M1 para M3 foi de 28.3%. Refira-se que se verificaram dois casos de mortalidade perinatal entre o M1 e o M2 (nos dois casos, a morte perinatal ocorreu após a entrega dos questionários M1), não tendo esses dois casais sido novamente contactados pelos investigadores, para participação na investigação. No último momento de avaliação participaram 43 casais, sendo que em sete destes casais, apenas as mulheres preencheram os questionários (percentagem de resposta do sexo masculino: 83.7%).

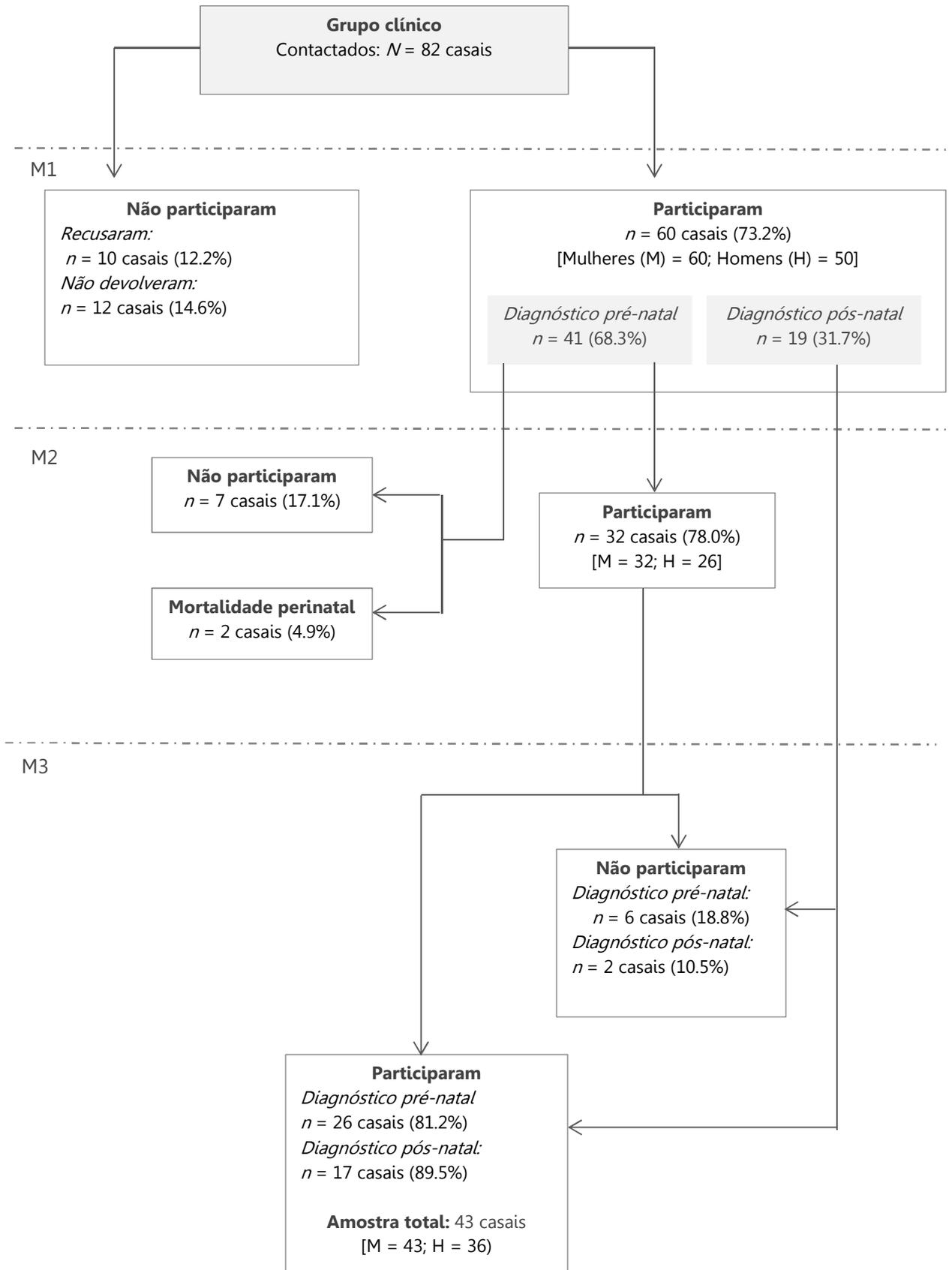


Figura 4 | Grupo clínico: Participantes nos diferentes momentos de avaliação

A comparação das características sociodemográficas dos participantes do grupo clínico que participaram nos diferentes momentos de avaliação ($n = 43$ casais) e dos que abandonaram a investigação no M2 ou no M3 (*drop-outs*, $n = 17$ casais) revelou a inexistência de diferenças estatisticamente significativas ao nível das características sociodemográficas (*Idade – mulheres*: $t_{58} = 0.93$, $p = .356$; *homens*: $t_{48} = 1.35$, $p = .183$; *Estado civil – mulheres*: $\chi^2 = 1.54$, $p = .463$; *homens*: $\chi^2 = 0.87$, $p = .647$; *Habilitações literárias – mulheres*: $t_{58} = -0.71$, $p = .459$; *homens*: $t_{48} = -.36$, $p = .730$; *Situação profissional – mulheres*: $\chi^2 = 0.41$, $p = .520$; *homens*: $\chi^2 = 1.24$, $p = .265$). De forma similar, não foram encontradas diferenças significativas entre os participantes nos diferentes momentos de avaliação e os *drop-outs*, no que respeita ao tipo de AC diagnosticada ao bebé (*mulheres*: $\chi^2 = 8.73$, $p = .120$; *homens*: $\chi^2 = 4.08$, $p = .538$). Apenas se verificou uma percentagem significativamente superior de *drop-outs* em mulheres cujo bebé recebeu o diagnóstico no período pré-natal ($n = 15$, vs. diagnóstico pós-natal: $n = 2$; $\chi^2 = 4.34$, $p = .037$), não se verificando diferenças significativas nos homens ($\chi^2 = 1.79$, $p = .181$). É possível que esta diferença se deva ao maior número de avaliações nos casais cujo bebé foi diagnosticado no período pré-natal e, consequentemente, à maior sobrecarga que a participação no estudo pode constituir.

Para o **grupo de controlo**, foram inicialmente contactados 100 casais que preenchiam os critérios para participação no estudo, dos quais 16 se recusaram a participar na investigação ou não devolveram os questionários referentes ao M1 (taxa de participação: 84.0%). Adicionalmente, 23 casais não devolveram os questionários no M2 (taxa de atrito experimental: 27.4%) e 15 casais não devolveram os questionários no M3 (taxa de atrito experimental de M1 para M3: 46.9%).

Note-se que os números da amostra apresentados nesta secção correspondem à amostra total recolhida; para os diferentes estudos empíricos, a amostra utilizada varia em função dos objetivos do estudo, das variáveis e dos momentos de avaliação considerados.

2.3. Métodos de recolha de informação: questionários e fichas de dados

Com o objetivo de cumprir os objetivos anteriormente descritos, os participantes dos grupos clínico e de controlo responderam a um protocolo de avaliação, nos diferentes momentos, composto por um conjunto de questionários de autorresposta e fichas de dados que visavam avaliar diferentes dimensões de vida dos indivíduos. No Quadro 4 apresentamos o conjunto de questionários e fichas de dados utilizados nos diferentes momentos de avaliação, para os grupos clínico e de controlo.

Quadro 4 | Dimensões avaliadas e instrumentos utilizados nos diferentes momentos de avaliação:
Grupo clínico e grupo de controlo

Dimensão avaliada	Instrumentos [Questionários / Fichas de dados]	G Clínico			G Controlo		
		M1	M2	M3	M1	M2	M3
Informação sociodemográfica e clínica	Ficha de dados sociodemográficos	☐	☐	☐	☐	☐	☐
	Ficha de dados clínicos (gerais)	☐	☐	☐	☐	☐	☐
	Ficha de dados clínicos (AC)	☐		☐			
Perceção sobre a AC	Ficha de dados sobre a comunicação e perceção do diagnóstico de AC	☐		☐			
Adaptação individual	Inventário de Sintomas Psicopatológicos [BSI-18]	☐	☐	☐	☐	☐	☐
	Instrumento de Avaliação da Qualidade de Vida da OMS [WHOQOL-Bref]	☐	☐	☐	☐	☐	☐
Adaptação parental	Questionário de Confiança Parental [QCP]		☐	☐		☐	☐
	Índice de <i>Stress</i> Parental [ISP-VR]			☐			☐
	Escala de Impacto Familiar [EIF]			☐			
Recursos	Escala de Vinculação no adulto [EVA]	☐			☐		
	Satisfação com o Apoio Social	☐	☐	☐	☐	☐	☐

Como se verifica no Quadro 4, alguns dos questionários e fichas de dados foram utilizados nos diferentes momentos de avaliação, enquanto outros foram apenas utilizados num único momento de avaliação. Para além disso, alguns dos questionários e fichas de dados foram utilizados apenas para o grupo clínico, por avaliarem dimensões específicas associadas à experiência de parentalidade de bebés com AC. De seguida, encontra-se uma breve descrição dos instrumentos utilizados na presente investigação.

Informação sociodemográfica e clínica: Ficha de dados

As fichas de dados sociodemográficos e clínicos foram elaboradas de forma a recolher informação relevante em cada momento de avaliação, para os dois grupos. A **ficha de dados sociodemográficos** incluída no M1, semelhante para os dois grupos, inquiria sobre os seguintes aspetos: idade, escolaridade, situação profissional e profissão, residência, estado civil, duração da relação conjugal e número de filhos. No M3, os participantes foram novamente inquiridos sobre a situação profissional do momento.

Os participantes dos dois grupos preencheram também **fichas de dados clínicos** nos três momentos de avaliação. No M1, os participantes foram inquiridos relativamente à história médica e psiquiátrica (existência de problemas médicos e de problemas psicológicos ou psiquiátricos, acompanhamento psicológico ou psiquiátrico no momento atual), história reprodutiva (número de gestações e de partos, história de perda gestacional, história de infertilidade e de tratamentos de fertilidade, história de parto pré-termo, história de outras complicações obstétricas) e sobre a

gravidez atual (planeamento da gravidez, existência de complicações obstétricas na gravidez atual, existência de gravidez múltipla, início da vigilância obstétrica e tempo de gestação aquando do preenchimento dos questionários¹³). No M2 foi recolhida informação acerca do parto (tipo de parto) e do recém-nascido (sexo, idade gestacional aquando do nascimento, peso e comprimento, índice de Apgar, necessidade de hospitalização na UCIN, realização de cirurgia no primeiro mês de vida, realização de exames médicos no primeiro mês de vida). Finalmente, no M3 os participantes foram novamente inquiridos sobre o seu estado de saúde no momento (existência de problemas médicos ou psiquiátricos desde o nascimento do bebé), bem como sobre a idade, o desenvolvimento (peso, altura, competências motoras, de comunicação e de interação) e o estado de saúde do bebé (necessidade de hospitalização, necessidade de intervenção cirúrgica, necessidade de medicação ou de exames médicos específicos).

Para além das fichas de dados clínicos comuns aos dois grupos, os participantes do grupo clínico preencheram uma ficha adicional de **dados clínicos** no M1, com informação **sobre o diagnóstico de AC**. Nesta ficha de dados foram incluídas as seguintes questões: i) o tipo de AC; ii) o momento de identificação do diagnóstico de AC (pré vs. pós-natal; se o diagnóstico ocorreu no período pré-natal: tempo de gestação aquando da identificação do diagnóstico); iii) suspeitas anteriores de existência da AC [*"Durante a gravidez, algum dos exames realizados indicou a possibilidade de existir a anomalia diagnosticada ao bebé?"*, respondido numa escala categorial dicotómica (Sim/Não)]; e iv) grau de certeza percebido acerca da AC [*"Qual é o grau de certeza acerca do diagnóstico do bebé?"*, com quatro opções de resposta de 1 = *tanto a anomalia diagnosticada no bebé como o seu prognóstico estão bem identificados* a 4 = *foi identificada a existência de uma anomalia no bebé, mas os dados existentes não possibilitam o estabelecimento de um diagnóstico ou de um prognóstico*].

As AC foram classificadas de acordo com as categorias propostas no sistema de classificação da EUROCAT¹⁴. Tendo em conta as AC reportadas pelos participantes do grupo clínico, formaram-se as seguintes categorias: anomalias cardíacas congénitas (cardiopatias congénitas); anomalias do sistema nervoso; anomalias do sistema digestivo; anomalias do sistema urinário; anomalias dos membros inferiores e superiores (*limb anomalies*); e lábio leporino e fenda palatina.

¹³ Esta questão não era colocada aos participantes do grupo clínico cujo diagnóstico ocorreu no período pós-natal.

¹⁴ O sistema de classificação de sub-grupos de AC proposto pela EUROCAT (EUROCAT, 2009a) baseia-se no sistema de classificação da CID-10 e foi proposto para facilitar o registo epidemiológico das AC, tendo sido adotado no presente trabalho.

Comunicação e percepção do diagnóstico de AC: Ficha de dados

Para examinar alguns aspetos relacionados com o momento de comunicação do diagnóstico de AC, bem como a percepção dos pais acerca da AC, foi desenvolvida uma ficha de recolha de informação. A opção pelo desenvolvimento desta ficha teve subjacente o facto de a maioria das investigações sobre a comunicação do diagnóstico de AC terem uma natureza qualitativa, pelo que não existem, do nosso conhecimento, instrumentos psicométricos desenvolvidos para avaliar este tópico (na maioria das investigações, os autores desenvolveram questões, que foram colocadas aos participantes sob a forma de entrevista ou questionário; e.g., Petrucelli et al., 1998). Assim, apesar de não ser nosso objetivo construir instrumentos psicométricos específicos para este tópico, considerámos pertinente desenvolver também um conjunto de questões para recolher informação sobre o momento de comunicação do diagnóstico de AC e sobre a percepção dos pais acerca da AC.

Para a construção desta ficha de dados, começámos por fazer uma revisão da literatura existente sobre o processo de comunicação do diagnóstico, incluindo aspetos como as reações emocionais à notícia do diagnóstico, o conhecimento prévio acerca do diagnóstico, ou as percepções parentais acerca do diagnóstico de AC (como referimos anteriormente, uma parte dessa revisão da literatura foi por nós publicada; cf. Anexo). Na revisão da literatura efetuada, procurámos atender não só às principais conclusões dos estudos, como também aos métodos de recolha da informação (especificamente, às questões formuladas para avaliar os diferentes tópicos); este procedimento orientou o desenvolvimento das questões da ficha de dados.

Para avaliar as **reações emocionais dos pais** à notícia do diagnóstico de AC, utilizámos uma questão com o seguinte enunciado: "*Quando soube do diagnóstico de AC no bebé, até que ponto sentiu cada uma destas emoções?*"; ao qual se seguiu uma lista de emoções. Este enunciado baseou-se no estudo de Petrucelli et al. (1998), que utilizou a entrevista telefónica como método de recolha de dados; para avaliar as reações emocionais dos pais, os autores pediram aos pais para indicarem quanto sentiram cada uma das emoções listadas ("From a list of feelings provided in the questionnaire, participants indicated the extent to which each was experienced when they learned of their prenatal diagnosis", p. 409). Para além das emoções listadas no estudo de Petrucelli et al. (1998), selecionámos outras, com base na revisão da literatura que efetuámos, perfazendo um total de dez: Ansiedade, Tristeza, Culpa, Raiva, Choque, Desespero, Frustração, Vergonha, Alívio e Esperança.

Para responder a esta questão, optámos por utilizar escalas visuais analógicas em detrimento de escalas ordinais, por considerarmos que as primeiras são mais adequadas para captar a magnitude/intensidade das reações emocionais parentais. As escalas visuais analógicas são utilizadas para medir constructos que variam num contínuo de valores, como a intensidade da dor ou a intensidade das emoções. Estas escalas consistem numa linha horizontal de um dado

tamanho (usualmente 100 mm, como a utilizada por nós) com rótulos verbais em cada extremo da linha (e.g., de $0 = Não\ senti$ a $100 = Senti\ muitíssimo$). Os participantes marcam a posição na linha que melhor descreve a sua resposta; o comprimento da linha até à marca de resposta do participante corresponde à sua pontuação. A utilização de escalas visuais analógicas possui ainda outras vantagens do ponto de vista estatístico, nomeadamente: i) permite o tratamento dos dados como contínuos, possibilitando a utilização de testes paramétricos; ii) melhora a consistência interna das questões; e iii) aumenta o poder estatístico das análises de dados (Abell, Springer, & Kamata, 2009; Peacock & Peacock, 2011).

Procurámos também avaliar o **conhecimento prévio** dos pais acerca do diagnóstico de AC. Partindo do questionário desenvolvido no estudo de Aite et al. (2004), elaborámos duas questões: i) *“Alguma vez tinha ouvido falar da AC que foi diagnosticada ao bebé?”*; e ii) *“Conhece (na sua família, grupo de amigos ou comunidade) outros bebés ou crianças mais velhas com a mesma AC diagnosticada ao seu bebé?”*, respondidas utilizando escalas categoriais dicotómicas (Sim/Não).

Adicionalmente, desenvolvemos duas questões para avaliar a **perceção dos pais acerca da AC** diagnosticada ao bebé, focando-nos na perceção de gravidade (esta tem sido uma das perceções mais utilizadas nas investigações; e.g., Simons, Ritchie, & Mullett, 1998) e na perceção do impacto futuro da AC em diferentes áreas. Para avaliar a perceção de gravidade, colocámos a seguinte questão: *“Qual é a sua opinião acerca da gravidade da AC diagnosticada ao bebé?”*, respondida numa escala visual analógica de $0 = Nada\ grave$ a $100 = Extremamente\ grave$. No que respeita à perceção do impacto futuro da AC em diferentes áreas¹⁵, utilizámos a questão: *“Até que ponto considera que a anomalia do bebé lhe causa ou poderá vir a causar incapacidades em cada uma das seguintes áreas?”*; para cada uma das áreas (Aprendizagem, Mobilidade, Comunicação, Relações com os outros, Atividades do dia a dia, Autocuidados), apresentou-se uma escala visual analógica (de $0 = Nada$ a $100 = Extremamente$).

Por último, procurámos avaliar a perceção dos pais acerca do **processo de comunicação do diagnóstico** de AC no bebé. Para a elaboração destas questões, baseámo-nos nos trabalhos de Petrucelli et al. (1998), Aite et al. (2004) e Hasnat e Graves (2000). Assim, foram elaboradas questões sobre o contexto de comunicação do diagnóstico: i) *“Quem lhe deu a notícia acerca do diagnóstico de AC no bebé?”*, respondida numa escala categorial de três opções (o seu médico obstetra; o médico neonatologista/pediatra; outro) e ii) *“Com quem estava quando teve conhecimento do diagnóstico de AC no bebé?”*, respondida numa escala categorial com três opções (sozinha/o, com a/o companheira/o, com outra(s) pessoas).

¹⁵ A seleção das áreas a considerar teve por base a classificação de Limitações de Atividade e Restrições na Participação proposta na Classificação Internacional de Funcionalidade, Incapacidade e Saúde – CIF (World Health Organization, 2001).

Foi ainda desenvolvida uma questão para avaliar a satisfação dos pais com a forma como o diagnóstico de AC foi comunicado (*“Relativamente ao momento em que recebeu a notícia do diagnóstico de AC no bebé, até que ponto considerou adequados os seguintes aspetos?”*). Utilizando escalas visuais analógicas, os participantes pronunciavam-se acerca do quanto consideravam adequado (de 0 = Nada adequado a 100 = Totalmente adequado) cada um dos seguintes aspetos do processo de comunicação da notícia diagnóstico de AC: momento, local, linguagem utilizada, quantidade de informação recebida, compreensão demonstrada pelo profissional de saúde e possibilidade de esclarecer dúvidas.

Adaptação individual

Sintomatologia psicopatológica

O Inventário de Sintomas Psicopatológicos (*Brief Symptom Inventory 18* – BSI-18; Derogatis, 2000) foi selecionado para avaliar a presença de sintomas indicadores de perturbação emocional (psicopatologia) nos indivíduos. Este questionário de autorresposta foi desenvolvido por Derogatis (2000) como uma versão abreviada da versão original do BSI (composta por 53 itens, organizados em nove dimensões de sintomatologia psicopatológica; Canavarró, 2007). Esta versão abreviada pretende ser uma medida de avaliação rápida das dimensões mais comuns de sintomatologia psicopatológica: Ansiedade, Depressão e Somatização.

O BSI-18 é composto por 18 itens, retirados da versão original do instrumento. Cada um destes itens corresponde a um sintoma psicopatológico; para cada item, os participantes têm que avaliar a intensidade do sofrimento associado a cada sintoma, nos sete dias anteriores à data da avaliação, numa escala de resposta de 5 pontos (de 0 = Nada a 4 = Extremamente). Os itens organizam-se em três dimensões: *Ansiedade* (6 itens; sintomas de tensão, estados de apreensão e pânico e agitação psicomotora), *Depressão* (6 itens; sintomas de humor disfórico, como autodepreciação, anedonia, perda de esperança e ideação suicida) e *Somatização* (6 itens; sofrimento causado pela perceção de disfunções corporais, sintomas relacionados com os sistemas cardiovascular, gastrointestinal e outros sistemas fisiológicos associados ao sistema nervoso autónomo). Para além das três dimensões, é possível calcular uma medida de sintomatologia psicopatológica geral, que corresponde ao somatório das pontuações de todos os itens (*Índice Global de Gravidade*). Para cada uma das dimensões e para a pontuação global, pontuações superiores são indicadoras de níveis mais elevados de sintomatologia psicopatológica.

A utilização do BSI-18 em diversos estudos tem demonstrado as suas boas características psicométricas (e.g., Andreu et al., 2008; Asner-Self, Schreiber, & Marotta, 2006). A versão portuguesa do instrumento apresenta também boas características psicométricas.

Especificamente, observaram-se bons indicadores de consistência interna (os valores de alfa de Cronbach oscilaram entre .79 na dimensão *Somatização* e .92 no *Índice Global de Gravidade*) e de estabilidade temporal (*Índice Global de Gravidade*: $r = .80$) numa amostra da população geral. Os resultados apontaram também para a validade convergente e discriminante do instrumento, suportando a sua utilização na investigação (Canavarro, Nazaré, & Pereira, 2011).

Qualidade de vida

O Instrumento de Avaliação da Qualidade de Vida da OMS (WHOQOL-Bref) é uma medida de avaliação subjetiva e multidimensional da qualidade de vida do indivíduo. Como salientam Skevington, Lofty e O'Connell (2004), neste instrumento de avaliação da qualidade de vida "... the WHOQOL Group takes the view that it is important to know how satisfied or bothered people are by important aspects of their life, and this interpretation will be a highly individual matter" (p. 299). A seleção deste instrumento teve por base a importância de considerar uma abordagem compreensiva da adaptação individual, isto é, que incluía diferentes indicadores do funcionamento dos indivíduos. O WHOQOL-Bref tem ainda sido crescentemente utilizado como um indicador do estado de saúde dos indivíduos (WHO, 1997), o que constitui uma justificação adicional para a inclusão deste instrumento na nossa investigação. Este instrumento é uma versão reduzida do questionário genérico de avaliação da qualidade de vida desenvolvido pela OMS (WHOQOL-100; Canavarro et al., 2009; The WHOQOL Group, 1994) e surgiu da necessidade de se criar um instrumento mais breve para avaliar este constructo, que revelasse igualmente boas características psicométricas (Skevington et al., 2004).

O WHOQOL-Bref é composto por 26 itens, respondidos numa escala de tipo Likert de 5 pontos. Os itens estão organizados numa faceta de *Qualidade de Vida Geral* (2 itens, percepção geral de qualidade de vida e de saúde) e em quatro domínios específicos: *Físico* (7 itens; e.g., dor e desconforto, energia e fadiga, dependência de medicação, atividades da vida quotidiana), *Psicológico* (6 itens; e.g., sentimentos positivos e negativos, autoestima, pensamento e aprendizagem, memória e concentração, imagem corporal), *Relações Sociais* (3 itens; e.g., relações pessoais, suporte social) e *Ambiente* (8 itens; e.g., recursos financeiros, informação, acesso a serviços de saúde e serviços sociais, segurança física). Pontuações mais elevadas em cada domínio representam uma percepção de melhor qualidade de vida.

Os estudos com a versão original do WHOQOL-Bref foram reveladores das boas características psicométricas do instrumento (The WHOQOL Group, 1998). De igual forma, o estudo de validação da versão portuguesa do instrumento demonstrou bons indicadores de consistência interna (os valores de alfa de Cronbach oscilaram entre .64 no domínio *Relações Sociais* e .84 no domínio *Psicológico*) e de estabilidade temporal (os coeficientes de correlação de *Pearson* variaram entre .65 no domínio *Relações Sociais* e .85 no domínio *Psicológico*). O

WHOQOL-Bref demonstrou ainda bom poder discriminativo (isto é, capacidade de discriminar entre indivíduos doentes e indivíduos da população geral) e boa validade de constructo (Vaz-Serra et al., 2006).

Adaptação parental

Confiança parental

Para avaliar a confiança parental, foi utilizada a versão portuguesa do *Maternal Confidence Questionnaire* (Parker & Zahr, cit. in Badr, 2005), designada pelos autores como Questionário de Confiança Parental (QCP; Nazaré, Fonseca, & Canavarro, 2011). A opção de incluir a confiança como indicador de adaptação parental teve por base duas razões: i) a importância de considerar uma abordagem compreensiva da adaptação parental, isto é, que incluía também dimensões positivas do funcionamento parental; e ii) a investigação apontar que a existência de problemas médicos no bebé se constitui como uma variável de particular relevo para o desenvolvimento da confiança parental.

O QCP é composto por 13 itens, respondidos numa escala de frequência de 5 pontos (de 1 = *Nunca* a 5 = *Sempre*). Os itens estão organizados em três dimensões: *Conhecimento Acerca do Bebé* (6 itens; nível de conhecimento que a pessoa percebe ter acerca do seu bebé, no que toca às suas necessidades e motivações), *Prestação de Cuidados ao Bebé* (3 itens; percepção de competência relativa a tarefas específicas de prestação de cuidados, por exemplo dar de comer, dar banho, pegar no bebé) e *Avaliação da Experiência de Parentalidade* (4 itens; grau de satisfação e confiança experienciadas pela pessoa no desempenho do papel parental). É ainda possível calcular uma pontuação total de *Confiança Parental*, a partir da média de todos os itens. Pontuações superiores correspondem a uma percepção mais elevada de confiança parental.

A generalidade dos estudos com a versão original do instrumento tem apontado para resultados satisfatórios de fidelidade e validade (Badr, 2005; Zahr, 1991). O estudo de validação da versão portuguesa do QCP, conduzido numa amostra de pais de bebés saudáveis de cerca de seis meses de idade, também demonstrou que o instrumento apresenta indicadores satisfatórios de fidelidade (os valores de alfa de Cronbach oscilaram entre .66 na dimensão *Avaliação da Experiência de Parentalidade* e .88 na *Confiança Parental Total*), bem como de validade convergente e discriminante (Nazaré et al., 2011).

Stress Parental

O Índice de *Stress Parental – Versão Reduzida* (ISP-VR; *Parenting Stress Index – Short Form*, Abidin, 1995) possibilita a avaliação da intensidade do *stress* no sistema pais-criança, e tem sido particularmente útil na avaliação do *stress* parental de pais de crianças com um diagnóstico de deficiência (Mert, Hallioglu, & Ankarali-Çamdeviren, 2008). Com este instrumento, é avaliado o nível de *stress* percebido pelos pais no desempenho do seu papel parental, não se incluindo o *stress* resultante de outros acontecimentos que são independentes desse papel. O ISP-VR foi desenvolvido a partir da versão original do instrumento (120 itens), e surgiu da necessidade de ter um instrumento de avaliação do *stress* parental que fosse mais breve e, por isso, de mais fácil aplicação.

O ISP-VR é composto por 36 itens, respondidos numa escala de Likert de 5 pontos (desde 1 = *Discordo completamente* a 5 = *Concordo completamente*). Os itens que compõem este instrumento organizam-se em três dimensões, com igual número de itens, referentes a fontes específicas de *stress*: *Dificuldade parental* (12 itens; domínio dos pais; avalia o nível de *stress* resultante das exigências de cuidar de uma criança, por exemplo, as restrições associadas às exigências de prestação de cuidados ou conflitos com o companheiro), *Criança Difícil* (12 itens; domínio da criança; avalia as percepções parentais acerca das capacidades autorreguladoras da criança) e *Interação Disfuncional Mãe/Pai-Criança* (12 itens; domínio da interação pais-filhos; avalia a insatisfação parental com as interações com o seu filho e a percepção acerca de como a criança se adequa às expectativas parentais). É também possível calcular uma *Pontuação Global de Stress Parental*, através do somatório da pontuação de todos os itens. Pontuações superiores são indicadoras de níveis mais elevados de *stress*.

Os estudos com a versão original e com outras versões do ISP-VR têm atestado as suas boas propriedades psicométricas (Díaz-Herrero, Nuez, Pina, Pérez-López, & Martínez-Fuentes, 2010; Haskett, Ahern, Ward, & Allaire, 2006). No que respeita à validação da versão portuguesa do instrumento, os estudos preliminares foram desenvolvidos por Santos (2011) e têm apontado para bons valores de consistência interna (coeficientes de alfa de Cronbach oscilaram entre .71 na dimensão *Interação Disfuncional Mãe/Pai-Criança* a .88 na *Pontuação Global de Stress*) e para a validade de constructo do instrumento.

Sobrecarga ou *burden* associado à prestação de cuidados

Para avaliar a sobrecarga ou *burden* associado à prestação de cuidados de um bebê com uma AC, foi utilizada a versão portuguesa da Escala de Impacto Familiar (EIF; *Impact on Family Scale - Revisited*; Stein & Jessop, 2003). A versão original da EIF (Stein & Riessman, 1980) foi desenvolvida para avaliar a percepção parental acerca do impacto da condição de saúde da criança

nas diferentes dimensões de vida dos pais (Sobrecarga Financeira, Tensão Pessoal, Impacto Familiar/Social e Mestria). Posteriormente, foi desenvolvida uma versão revista da escala (*Impact on Family Scale – Revisited*), composta por 15 itens (os itens das dimensões Tensão Pessoal e Impacto Familiar/Social da versão original do instrumento) que se organizaram numa dimensão única de sobrecarga ou *burden* associado à prestação de cuidados (Stein & Jessop, 2003); esta versão revista serviu de base à adaptação da versão portuguesa da EIF (Albuquerque et al., 2011). Como referimos anteriormente, a inclusão de indicadores específicos de adaptação para avaliar o impacto de cuidar de uma criança com um diagnóstico de AC permite complementar a informação recolhida através dos indicadores gerais de adaptação individual e parental, anteriormente descritos.

A versão portuguesa da EIF é composta por 15 itens, respondidos numa escala de Likert de 4 pontos (desde *1 = Discordo muito* a *4 = Concordo muito*). A pontuação total é calculada através do somatório dos 15 itens. Pontuações superiores são indicadoras de perceção de maior sobrecarga associada à condição de saúde da criança.

Os estudos com a versão original da EIF têm demonstrado que o instrumento possui boas características psicométricas (Stein & Jessop, 2003; Williams, Piamjariyakul, Williams, Bruggeman, & Cabanela, 2006). De forma similar, os resultados obtidos no estudo de validação da versão portuguesa da EIF mostram que o instrumento apresenta indicadores positivos de fidelidade (coeficiente de alfa de Cronbach = .91; estabilidade temporal: $r = .80$), bem como de validade convergente e discriminante (Albuquerque et al., 2011).

Recursos

Vinculação no adulto

A Escala de Vinculação no Adulto (EVA; Canavarro, 1999), versão portuguesa da *Adult Attachment Scale – Revised* (Collins & Read, 1990), foi selecionada para avaliar as representações mentais de vinculação no adulto (representações mentais do *self* e do outro em relações próximas), aqui entendidas como um recurso interno ativado em situações potencialmente indutoras de *stress*, como é o caso do diagnóstico de AC no bebé. Os modelos internos dinâmicos (ou representações mentais) do *self* e do outro, apesar de poderem sofrer alterações, são conceptualizados como predominantemente consistentes ao longo do tempo, e como tendo origem nas experiências de vinculação precoces (Canavarro, Dias, & Lima, 2006).

A EVA compreende 18 itens; aos participantes, é pedido que indiquem o grau em que cada uma das afirmações descreve a forma como geralmente se sentem nas relações afetivas que estabelecem, utilizando uma escala de resposta de 5 pontos (de *1 = Nada característico em mim* a *5 = Extremamente característico em mim*). Na versão original da escala (Collins & Read, 1990) foi encontrada uma estrutura fatorial de três fatores, replicada na versão portuguesa (Canavarro

et al., 2006): *Conforto com a Proximidade* (6 itens; grau em que o indivíduo se sente confortável com a proximidade e intimidade), *Confiança nos Outros* (6 itens; grau de confiança nos outros e na sua disponibilidade, quando necessária) e *Ansiedade* (6 itens; grau de ansiedade em relação a questões interpessoais como o medo do abandono ou de não ser bem querido). Posteriormente, uma das autoras da versão original da escala (Collins, 2008) propôs uma reorganização dos itens da escala em duas dimensões¹⁶, numa aproximação à conceptualização teórica: *Ansiedade* (associada às representações mentais do *self*; grau de dúvida acerca da capacidade do *self* formar e manter relações próximas; medo de abandono; preocupação de que os outros possam não prestar apoio, se necessário) e *Evitamento* (associada às representações mentais do outro; grau em que os indivíduos procuram manter independência psicológica e emocional de outros significativos e desejam limitar a intimidade). Os indivíduos com pontuações baixas nas duas dimensões (isto é, que se consideram merecedores de apoio e amor e acreditam que os outros são pessoas de confiança e que prestarão apoio em caso de necessidade) apresentam representações mentais de vinculação seguras, enquanto os indivíduos que apresentam pontuações elevadas em pelo menos uma dimensão apresentam representações mentais inseguras do *self*/ou dos outros (Griffin & Bartholomew, 1994; Simpson, Rholes, Campbell, Tran, & Wilson, 2003).

Os estudos realizados com a versão original da EVA apontam para que o instrumento apresente as características satisfatórias do ponto de vista psicométrico (Collins & Read, 1990). No que respeita aos estudos psicométricos da versão portuguesa da EVA, os valores de consistência interna encontrados foram inferiores aos desejáveis (Coeficientes de alfa de Cronbach foram de .54 na dimensão *Confiança nos Outros*, .67 na dimensão *Conforto com a Proximidade* e .84 na dimensão *Ansiedade*). No entanto, o instrumento revelou bons indicadores de validade; verificou-se ainda que as dimensões permitiam a discriminação entre população clínica e população geral (Canavarro et al., 2006). Estudos preliminares por nós realizados com a estrutura bidimensional proposta por Collins (2008) mostraram valores de consistência interna satisfatórios.

Satisfação com o apoio social

Para avaliar a satisfação dos pais com as diferentes fontes de apoio social, recorreremos à adaptação de alguns itens da *Family Support Scale*¹⁷ (Dunst, Jenkins, & Trivette, 1984), uma escala

¹⁶ Nesta reorganização, o fator *Ansiedade* permanece com os mesmos itens e o fator *Evitamento* inclui os itens correspondentes às dimensões *Conforto com a Proximidade* e *Confiança nos Outros*.

¹⁷ Para além de não estar adaptada para a população Portuguesa, a opção por não utilizar a escala completa teve por base o facto de a mesma ser utilizada com pais de crianças mais velhas, pelo que inclui algumas fontes de apoio social (e.g., escola) que não são aplicáveis no período de transição para a parentalidade. Tentando minimizar a sobrecarga associada ao preenchimento de um protocolo de avaliação extenso, e sendo esta uma variável avaliada nos três momentos de avaliação e para os dois grupos, procurámos

que avalia a percepção de utilidade/satisfação com o apoio social de diferentes fontes (cada item corresponde a uma fonte específica de apoio social, e.g., companheiro/a, família nuclear). Assim, através da pergunta: "*Até que ponto se sente satisfeito/o com o apoio que tem recebido, após o diagnóstico de AC/durante a gravidez/após o nascimento do bebé, por parte das seguintes pessoas?*", os participantes foram questionados acerca do grau de satisfação com o apoio recebido por parte do Companheiro/a, Família nuclear (pais e irmãos), Família nuclear do/a companheiro/a, Amigos e Profissionais de saúde. Para cada fonte de apoio social, os participantes responderam utilizando uma escala visual analógica de 0 = *Nada satisfeito/o* a 100 = *Extremamente satisfeito/o*.

2.4. Respeito pelos princípios éticos

A preocupação e o respeito pelos princípios éticos na investigação científica nortearam a condução de todo o processo de investigação. Assim, ao definirmos as opções metodológicas, procurámos ter sempre em consideração as recomendações éticas de associações científicas internacionais importantes – Declaração de Helsínquia (World Medical Association, 2000) e Associação Americana de Psicologia [APA] (2010) –, assim como as recomendações do Código Deontológico da Ordem dos Psicólogos Portugueses.

A investigação com seres humanos deve ser orientada pelo princípio da *beneficência e não-maleficência*, pelo que para além de se focar em questões científicas pertinentes, deve considerar como aspetos prioritários a proteção da saúde, a privacidade e a dignidade dos participantes. Deste modo, na **fase de desenvolvimento do projeto de investigação**, procedemos a uma reflexão cuidadosa acerca da relevância dos objetivos da nossa investigação, bem como das opções metodológicas e das suas potenciais consequências (riscos e benefícios) para os participantes. Essa reflexão decorreu inicialmente no contexto da equipa de investigadores do projeto e com base numa revisão da literatura sobre o tópico, mas foi posteriormente alargada a outros agentes, no contexto académico (discussão do projeto de investigação no âmbito do Programa Interuniversitário de Doutoramento em Psicologia Clínica) e clínico (profissionais de saúde que trabalham com a população-alvo). Desta reflexão surgiram implicações, por exemplo, ao nível da forma como o contacto com os participantes foi estabelecido; o contacto inicial através da equipa médica (com quem os participantes já haviam estabelecido uma relação de confiança) e apenas um mês após o diagnóstico de AC (de forma a que a participação no estudo não constituísse um fator de *stress* adicional no momento da comunicação do diagnóstico de AC, dada a reatividade emocional e a complexidade da informação recebida) teve como objetivo proteger o bem-estar dos participantes. Depois de

selecionar apenas os itens correspondentes a fontes de apoio identificadas como importantes na literatura sobre a transição para a parentalidade (Bost, Cox, Burchinal, & Payne, 2002).

recolhidas e integradas as diferentes sugestões decorrentes deste processo de reflexão, submetemos o projeto de investigação à consideração das Comissões de Ética das instituições hospitalares onde decorreu a investigação (Hospitais da Universidade de Coimbra e Centro Hospitalar de Coimbra; atualmente, ambos integram o Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, EPE), tendo sido aprovado nas duas instituições.

Após a aprovação do projeto de investigação, passámos à sua **implementação** nas instituições hospitalares. No contacto com os participantes para participação na investigação, tivemos também em consideração diferentes recomendações éticas. Para além do que referimos anteriormente (contacto inicial pela equipa médica, um mês após o conhecimento do diagnóstico de AC), foi fornecida aos participantes informação sobre a investigação, nomeadamente sobre os seus objetivos, procedimentos, relevância do estudo, potenciais riscos e benefícios para os participantes, e garantia de confidencialidade. Os participantes foram também informados quanto à natureza voluntária da participação (isto é, ausência de implicações da recusa/desistência de participação no processo de acompanhamento médico ou psicológico), para poderem tomar uma *decisão informada* quanto à sua participação. Independentemente da sua participação no estudo, os pais contactados foram ainda informados da possibilidade de acesso ao atendimento clínico, na consulta de Psicologia da Unidade de Intervenção Psicológica da Maternidade Doutor Daniel de Matos.

A todos aqueles que aceitaram participar na investigação, foi-lhes pedido o preenchimento do formulário de consentimento informado. Neste documento, descreviam-se os objetivos gerais e procedimentos da investigação, os papéis dos participantes e dos investigadores (incluindo a garantia de confidencialidade sobre os dados fornecidos e a sua utilização apenas para fins de investigação; e a garantia de participação voluntária), bem como os contactos e afiliação institucional dos investigadores. A informação disponibilizada no documento de consentimento informado foi também explicada oralmente, para possibilitar o esclarecimento de dúvidas.

Após o preenchimento do formulário de consentimento informado, demos aos participantes os protocolos correspondentes ao primeiro momento de avaliação; os protocolos relativos aos restantes momentos de avaliação foram enviados por correio. Ao longo de todo o processo de investigação, revelámo-nos disponíveis para o esclarecimento de dúvidas, quer relacionadas com aspetos gerais da participação no estudo, quer com aspetos específicos (e.g., dúvidas sobre questões do protocolo de investigação). Essa disponibilidade foi manifestada não só na entrevista inicial com os participantes, como também nas cartas que enviámos a acompanhar os protocolos de avaliação nos diferentes momentos. Além disso, adotámos algumas medidas específicas com o objetivo de *garantir o anonimato e a confidencialidade dos dados recolhidos*, nomeadamente: i) recolhemos os dados pessoais estritamente necessários à realização da investigação e os mesmos mantiveram-se confidenciais; ii) atribuímos um número de código aos participantes, para não permitir a sua identificação por outras pessoas que não as

da equipa de investigação e para que, mesmo para a equipa de investigação, a identificação fosse mantida apenas enquanto fosse necessária; iii) junto dos protocolos de avaliação enviados por correio, enviámos um envelope pré-selado para a devolução dos questionários preenchidos, incluindo apenas a morada dos destinatários (equipa de investigadores), de forma a não incluir elementos identificativos dos remetentes; e iv) inserimos os dados numa base de dados, analisando-os exclusivamente de forma coletiva.

Finalmente, a nossa preocupação com o respeito pelas recomendações éticas estendeu-se também à **divulgação dos resultados**, para a comunidade científica (publicações, comunicações em congressos) e para o público em geral. Assim, sempre que apresentámos resultados da nossa investigação, procurámos reportá-los de forma objetiva e precisa, tentando sempre adequar o estilo de comunicação ao público-alvo (comunidade científica vs. população geral) com o objetivo de minimizar a possibilidade de interpretações erradas dos resultados. Adicionalmente, disponibilizámos aos participantes informação acerca dos resultados e/ou principais conclusões da investigação, através da página web do grupo de investigação Relações, Desenvolvimento & Saúde, no qual este projeto está integrado [www.fpce.uc.pt/saude/diagnostico.htm]. Após a conclusão do projeto de investigação, será também enviado a todos os participantes, por correio, um documento com os principais resultados.

2.5. Análises estatísticas

As análises estatísticas são uma componente importante do processo de investigação, porque permitem, após a recolha de dados, dar resposta às questões de investigação colocadas. Apesar de cada estudo empírico apresentar, em secção própria, as análises estatísticas utilizadas e a sua justificação, consideramos pertinente referir aqui alguns aspetos gerais sobre este tópico.

A não-independência das observações do casal (díade)

Como referimos oportunamente no capítulo introdutório deste trabalho, o reconhecimento da não-independência das características e dos resultados de adaptação dos dois membros do casal é importante, quer do ponto de vista conceptual, quer do ponto de vista metodológico e estatístico, para melhor conhecer a (in)adaptação à parentalidade, quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé.

Do ponto de vista estatístico, o reconhecimento da não-independência das observações do casal foi evidente neste trabalho. Em primeiro lugar, as comparações de género foram

realizadas entre mães e pais do mesmo casal, ou seja, considerando o gênero como variável *within-subject*, para isso, a base de dados foi reestruturada, de forma a considerar o casal como unidade de análise (cada casal como um sujeito, e cada pontuação dos membros do casal como uma variável; Kenny et al., 2006). Em segundo lugar, quando se estudaram os fatores de influência na adaptação dos pais (especificamente, a influência das variáveis clínicas nas reações emocionais, Estudo Empírico II; e o papel moderador do grupo na relação entre representações vinculação e ajustamento parental, Estudo Empírico IV), as análises foram conduzidas separadamente para as mães e para os pais, de forma a não violar o pressuposto da independência das observações necessário para a condução destas análises (Field, 2009). Em terceiro e último lugar, num dos estudos empíricos deste trabalho (Estudo Empírico V) focámo-nos na análise dos efeitos do parceiro e das influências mútuas na adaptação dos membros do casal, seis meses após o nascimento de um bebê com AC. Para este estudo, baseámo-nos no modelo *Actor-Partner Interdependence Model* (Cook & Kenny, 2005) e na metodologia diádica de análise de dados proposta por estes autores para estudar estes efeitos, descrita de forma mais pormenorizada no estudo empírico.

A seleção das análises estatísticas adequadas aos objetivos da investigação

A presente investigação assenta em três objetivos específicos, que implicam a utilização de diferentes técnicas de análise estatística. A seleção das análises estatísticas mais adequadas depende da consideração simultânea dos objetivos e das hipóteses a testar, mas também da natureza e características dos dados. Especificamente, os dois primeiros objetivos da investigação dizem respeito à caracterização das reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC e à sua adaptação subsequente. Para dar resposta a estes objetivos utilizámos testes estatísticos para comparação de médias (e.g., MANOVA, *t* de student) que permitiram fazer comparações das reações emocionais e/ou dos diferentes indicadores de adaptação em função do grupo (grupo clínico vs. controlo; Estudos Empíricos III e IV), do gênero (mães vs. pais, Estudos Empíricos I, II, III, IV e VI) e ao longo do tempo (adaptação no M1 vs. adaptação no M3; Estudo Empírico VI). Para além disso, recorreremos à técnica de análise de *clusters*, uma técnica exploratória de análise de dados que permite classificar os sujeitos de acordo com semelhanças e dissemelhanças em certas características, identificando padrões num determinado grupo de sujeitos (e.g., padrões de reações emocionais, Estudo Empírico I; padrões de adaptação individual em diferentes momentos, Estudo Empírico VI); a utilização desta técnica estatística constitui-se como um contributo adicional à informação oferecida pelos testes de comparação de médias, ao permitir conhecer a diversidade de resultados e percursos de (in)adaptação dentro do grupo de pais de bebês com AC.

O terceiro objetivo desta investigação centra-se na compreensão de alguns dos processos subjacentes à diversidade de resultados de (in)adaptação à parentalidade. Para dar resposta a este objetivo, recorreremos a técnicas de comparação de variáveis contínuas (testes não paramétricos como o *U de Mann-Whitney*, uma vez que não estavam garantidos os pressupostos para a utilização de testes paramétricos) e categoriais (teste do qui-quadrado) para caracterizar a influência das variáveis clínicas nas reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC (Estudo Empírico II). Além disso, recorreremos também às técnicas de regressão linear múltipla, com o objetivo de analisar os efeitos de moderação da variável grupo na relação entre as representações de vinculação e a adaptação individual e parental (Estudo Empírico IV), bem como dos efeitos do suporte social de um membro do casal na sua própria adaptação e na adaptação do outro membro do casal (análise dos efeitos do parceiro e dos efeitos indiretos, Estudo Empírico V).

Análises de poder estatístico e a magnitude do efeito

Neste trabalho, procedemos ao cálculo do poder estatístico *a posteriori* para os diferentes testes realizados, utilizando o programa G*Power (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007). Este cálculo permite identificar qual é a magnitude do efeito detetada para cada teste estatístico, considerando o nível de poder (.80), o nível de significância ($p < .05$) e o tamanho da amostra; os resultados são apresentados em cada estudo empírico. De forma geral, para a nossa amostra, verificámos que os testes estatísticos apresentam um poder que permite a deteção de efeitos de magnitude média a elevada; neste sentido, a presença de alguns efeitos pequenos pode não ter sido detetada, devido ao tamanho da nossa amostra. Para tentar contornar essa limitação, apesar de considerarmos o nível de significância convencional, reportámos também efeitos marginalmente significativos ($p < .10$), alertando para efeitos que se podem revelar significativos se os testes forem replicados em amostras maiores.

Para além do poder estatístico, apresentámos também, tal como recomendado pela APA (2010), a estimação da magnitude do efeito dos resultados encontrados, bem como a interpretação dessa magnitude (efeitos pequenos, médios ou grandes). De forma geral, para os testes de comparação de médias utilizámos o eta-quadrado (η^2) ou o *d* de Cohen, e para as análises de correlação e de regressão linear considerámos, respetivamente, o *r* e o *Adjusted R*² como medidas indicadoras da magnitude do efeito (Cohen, 1992). Esta informação complementa a informação da significância estatística de um determinado teste, ao indicar-nos a relevância prática do resultado, ou seja, se o efeito significativo encontrado é pequeno, médio ou grande.



Capítulo 3

Estudios Empíricos

Estudo Empírico I

Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly

2011

Journal of Reproductive and Infant Psychology

Volume 29

Páginas: 320-333

doi: 10.1080/02646838.2011.634398

Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

Objective: This study aimed to describe parental reactions at the disclosure of a diagnosis of a congenital anomaly and to investigate both the existence of distinct patterns of intensity of reactions and their association with post-diagnosis psychosymptomatology.

Background: When receiving the news of a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly, parents usually display acute grief reactions. However, questions arise regarding the variability and intensity of those reactions and their clinical significance.

Method: 51 women and 42 men whose infants were diagnosed with a congenital anomaly answered, one-month after the disclosure, the Brief Symptom Inventory-18 and retrospectively evaluated their emotional experience at disclosure.

Results: Negative emotions, and also hope, were experienced with greater intensity at disclosure. There was variability of emotional reactions, as two distinct patterns were identified: one pattern fits the acute grief reactions pattern, and another of less intense emotional reactions. No gender differences were found on emotional reactions. Higher-intensity reactions at disclosure were associated with more psychosymptomatology one-month later only for fathers.

Conclusion: Findings suggest the need for healthcare professionals to adjust their practice to meet parental needs in the early post-diagnosis stage. Both parents should be given the opportunity to express their emotions as a couple and individually.

Key-words: congenital anomaly; disclosure; prenatal diagnosis; postnatal diagnosis; parental emotional reactions; psychopathological symptoms.

Introduction

The public health impact of congenital anomalies is widely recognised as the leading cause of infant mortality and morbidity. The increased medical demands of caring for an infant with a diagnosis of congenital anomaly (DCA) may have financial, social, and emotional costs for the parents (Mazer et al., 2008). As such, the pre- or postnatal diagnosis disclosure triggers a set of parental emotional reactions (Statham, Solomou, & Chitty, 2000). This study aimed to examine both maternal and paternal emotional reactions following the diagnosis disclosure and to evaluate their association with psychopathological symptoms in the early post-diagnosis stage. This information can help health professionals to recognise the most common reactions (Statham et al., 2000), and to tailor their practice to meet parental needs in the period immediately following the disclosure (Aite et al., 2004).

A growing body of research has sought to characterise parental reactions at the time of the disclosure of the DCA, which is often unexpected for parents (Mitchell, 2004) and forces them to face a great deal of new and frightening information (Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006). Unpreparedness to receive the news of the diagnosis results from the lack of early indicators that something might be wrong with the infant, or from previous successful experiences (e.g., previous healthy child, absence of family history of congenital anomaly; Lalor & Begley, 2006).

Research has shown that parents remember vividly the circumstances of the disclosure and describe their reactions in great detail (Drotar, Baskiewicz, Irvin, Kennell, & Klaus, 1975). Regardless of the type of congenital anomaly, the range of parental emotional reactions seems to reflect a grief response (Chaplin, Schwitzer, & Perkoulidis, 2005; Kerr & McIntosh, 1998) because the diagnosis is often conceptualised as the loss of a healthy child (Jones, Statham, & Solomou, 2005). The initial emotional reactions are described as overwhelming and intense (Drotar et al., 1975; Lalor, Begley, & Galavan, 2009), and they are frequently composed of conflicting feelings (Graungaard & Skov, 2007; Jones et al., 2005).

Predominantly negative emotional reactions are described in the studies. Commonly mentioned reactions include shock (Chaplin et al., 2005; Drotar et al., 1975; Lalor et al., 2009); sadness and anxiety (Aite, Zaccara, Nahom et al., 2006; Lalor et al., 2009; Petrucelli, Walker, & Schorry, 1998); anger, guilt, despair, and frustration (Chaplin et al., 2005; Kerr & McIntosh, 1998; Petrucelli et al., 1998); and less frequently, shame (Griffin, 2002).

Less often reported are positive emotions like relief (when a prognosis and treatment options are presented; Petrucelli et al., 1998) and hope, which may be associated with the parental belief that their infant will manage well, despite the DCA, or with the expectation that the diagnosis was a mistake (Johansson & Ringsberg, 2004; Sommerseth & Sundby, 2010).

Although research has focused separately on parental reactions to a pre- (e.g., Aite et al., 2006; Chaplin et al., 2005) or postnatal diagnosis (e.g., Drotar et al. 1975; Kerr & McIntosh, 1998),

Aite et al. (2006) reported that “the hypothetical model proposed by Drotar to describe the adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation is applicable to prenatal age” (p. 652); those studies described similar initial reactions, characterised by intense and negative emotions. Also, Nusbaum et al. (2008) found that, regardless of the timing of the DCA, similar emotional reactions were found at disclosure.

Findings concerning parental emotional reactions to the DCA stem from research using qualitative designs (e.g., Aite et al., 2006), with an almost exclusive focus on maternal experiences (e.g., Lalor et al., 2009) and with great variability in the time elapsed from diagnosis to assessment (e.g., Drotar et al., 1975). Despite these limitations, as Statham et al. (2000) described, existing research highlights a predominant pattern “compatible with most acute grief reactions” (p. 733) following the DCA disclosure; common emotions experienced within acute grief reactions are deep shock, sadness, anxiety, anger, and despair, which may manifest in a set of behavioural and physiological responses (crying, isolation, sleeping and eating problems; Chaplin et al., 2005). However, the authors (Statham et al., 2000) also mentioned that several issues require further study, including the variability in parental reactions and the association of those reactions with more adverse psychological effects.

Differences have been found in the frequency with which different emotions are reported (e.g., Petrucelli et al., 1998, found that all parents reported fear and sadness, approximately 70% reported frustration, and only 50% reported anger and guilt). However, given the qualitative nature of most studies, it is unknown whether parents experience every emotion with the same intensity and whether these differences have clinical significance, i.e., whether they should be given particular attention by health professionals, as they may be indicative of current or future maladjustment. Additionally, the place of positive emotions described as parental emotional reactions to the DCA is also unclear because they do not fit the pattern of acute grief reactions. Thus, one of the goals of this study was to contribute to the knowledge of the variability in parental emotional reactions to the DCA.

There is growing consensus of the importance of fathers’ experiences during pregnancy (Locock & Alexander, 2006) and the detrimental effects of intra-couple incongruent reactions to a stress-inducing event (Marshak & Prezant, 2007). However, paternal reactions to the DCA have been scarcely explored, unlike the reactions of mothers, even in studies that comprised men (e.g., Drotar et al., 1975). Two existing studies revealed a similar pattern of reactions in mothers and fathers, although the latter did not mention guilt, and fathers overall reported less intense emotional reactions than did mothers (Kerr & McIntosh, 1998; Schuth, Karck, Wilhelm, & Reish, 1994). Locock and Alexander (2006) suggested that men try to assume a protective role with their partners during the diagnosis process by remaining optimistic or by containing their own emotions. Similarly, in the context of parental bereavement research, the concept of incongruent grief was developed to describe the differences between maternal and paternal grief responses. Mothers were found to have more intense grief responses after the loss of their infant, and to

express their suffering more, while men tend to exert more control over their emotional expression (e.g., Goldbach, Dunn, Toedter, & Lasker, 1991; Lang, Gottlieb, & Amsel, 2001).

Parental emotional reactions to the DCA are expected to be related to their early post-diagnosis emotional adjustment (i.e., psychopathological symptoms), as Taanila, Syrjälä, Kokkonen, and Järvelin (2002) showed that the first moments and days after being informed of their child's disability were critical in determining the family's adaptation process. Several studies described a process of gradual adjustment to the diagnosis (Lalor et al., 2009), although some parents may face difficulties. For example, approximately one month after the DCA, Doherty et al. (2009) found clinically significant levels of psychopathological symptoms in 33% of mothers and 18% of fathers; another study found that, approximately one week after the diagnosis, parents of children with congenital heart disease experienced higher levels of distress when compared to norms. Unlike the first study, this study has found no gender differences in the proportion of clinically significant psychopathological symptoms (Brosig, Whitstone, Frommelt, Frisbee, & Leuthner, 2007).

Few prospective longitudinal studies have assessed the emotional adjustment of parents, over time, after a DCA. However, the existent studies showed that adjustment in the early post-diagnosis stage predicted parental adjustment in later evaluations (e.g., six months after the birth of the infant, Skari et al., 2006). Furthermore, even when there was a decrease in the levels of psychopathological symptoms over time, they tended to keep significantly higher than the normative values (Brisch et al., 2003; Brosig et al., 2007). Similar results were found in a longitudinal study on the impact of a perinatal loss in maternal psychopathological symptoms. Specifically, it was found that the vast majority of mothers who presented clinically significant anxiety and depression symptoms in later assessments (8, 15 and 30 months post-loss) had also shown clinically significant scores of psychological distress in the initial assessment (2 months post-loss). This suggests that women who experience chronic distress after a perinatal loss, tend to present clinical levels of psychopathological symptoms in the early post-loss period; as such, a clinical evaluation at this time point becomes crucial in order to identify mothers at risk for long-term mental health problems (Boyle, Vance, Najman, & Thearle, 1996).

Considering this, the early post-diagnosis stage may be a privileged period for risk situations to be identified by health professionals (in follow-up obstetric or paediatric appointments, after the DCA disclosure) and targeted for specialised counselling. While needing to deal with a grieving process for the loss of their healthy infant (e.g., Chaplin et al., 2005; Jones et al., 2005), parents simultaneously have to manage other issues associated with the DCA (e.g., treatment decisions, information about the DCA, the caregiving demands of an infant with a DCA; Howard, 2006). As coping with these multiple stressors may be more difficult in the presence of emotional maladjustment, it is important to understand the relationship between the intensity of emotional reactions at disclosure and the early post-diagnosis stage adjustment, which, to our knowledge, has not been previously explored. In this study, this association was investigated.

In summary, this study aimed: 1) to characterise parental emotional reactions at the disclosure, considering the frequency and intensity of emotions and the existence of different patterns of intensity of emotional reactions; 2) to investigate gender differences on emotional reactions at the disclosure; and 3) to investigate whether emotional reactions at the disclosure influenced the presence of psychopathological symptoms, one month after the DCA, for both mothers and fathers.

Based on the literature review, we expect that: Hypothesis 1) reactions of shock, sadness and anxiety will be experienced more frequently and with higher intensity, while other emotions such as shame, relief, or hope, will be less frequent and less intense; Hypothesis 2) there will be variability in the intensity of emotional reactions (more than one pattern of reactions); Hypothesis 3) women will present more-intense emotional reactions than will men; and Hypothesis 4) more-intense negative emotional reactions will be associated with more psychopathological symptoms for both mothers and fathers.

Methods

Participants and procedure

This study was approved by the Ethics Committees of the Hospitais da Universidade de Coimbra (HUC) and Centro Hospitalar de Coimbra (CHC), two Portuguese urban reference hospitals. Inclusion criteria for the present study were: parents whose infant was pre- or postnatally diagnosed with a congenital anomaly, without the occurrence of perinatal death or termination of pregnancy for fetal anomaly, and a level of literacy that allowed the comprehension of the assessment protocol.

Between September 2009 and January 2011, the sample collection took place in the Obstetrics and Neonatology Departments of HUC; parents of infants with congenital heart disease were contacted in the Paediatric Cardiology Service of the Paediatric Hospital (CHC). Approximately one month after the disclosure of the DCA, all parents (consecutive sampling) were informed by the medical team about this investigation at the end of a medical appointment, and their authorisation to be contacted by the researchers was sought. The research goals were presented to all parents contacted, and an informed consent form was signed by those parents who agreed to participate. Participants were given the questionnaires, and were asked to return them to the researchers at their next medical appointment (average time until return: $M = 21.84$ days, $SD = 12.57$).

A total of 69 couples were contacted, of whom 18 refused to participate/did not return the questionnaires (participation rate= 74%). Of the remaining 51 couples, the questionnaires were returned by both members of 42 couples (82.4%) and only by women in eight cases (17.6%).

The final sample comprised 93 participants (54.8% were women). Demographic and clinical data for the sample are presented in Table 1. There were no gender differences in

demographic data, with exception of educational level: on average, women had studied longer than men.

Table 1 | Socio-demographic and clinical characterization of the sample

	Total (<i>N</i> = 93)	Mothers (<i>n</i> = 51)	Fathers (<i>n</i> = 42)		
Demographics					
	<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)	χ^2/t	<i>p</i>
	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)		
<i>Age</i>	31.51 (4.68)	31.14 (4.93)	31.95 (4.36)	- 0.84	.406
<i>Marital status</i>					
Married/Living together	86 (92.5)	46 (90.2)	40 (95.2)	1.76	.414
Single/Divorced	7 (7.5)	5 (9.8)	2 (4.8)		
<i>Education</i>	13.59 (3.48)	14.39 (3.4)	12.62 (3.38)	2.51	.014
<i>Employment status</i>					
Employed	83 (89.1)	43 (84.3)	40 (95.2)	2.86	.091
Unemployed	10 (10.8)	8 (15.7)	2 (4.8)		
Clinical					
			<i>n</i> (%)		
<i>Parity</i>					
Primiparity			34 (60.8)		
Multiparity			17 (39.2)		
<i>Timing of diagnosis</i>					
Prenatal diagnosis	39 (76.5)	[Gestational age at diagnosis: <i>M</i> (<i>SD</i>) = 23.18 (5.12) weeks]			
Postnatal diagnosis			12 (23.5)		
<i>Congenital anomalies</i>					
Urinary system anomalies	15 (29.4)	[14 (93.3) prenatally diagnosed]			
Nervous system anomalies	8 (15.7)	[8 (100) prenatally diagnosed]			
Congenital heart disease	11 (21.6)	[4 (36.4) prenatally diagnosed]			
Digestive system anomalies	6 (11.8)	[6 (100) prenatally diagnosed]			
Visible anomalies	11 (21.6)	[7 (63.6) prenatally diagnosed]			

Measures

Socio-demographic (gender, age, marital status, educational level, and professional status) and clinical information about the infant's DCA [type of DCA according to the European Surveillance of Congenital Anomalies categorisation (EUROCAT, 2009); timing of diagnosis (pre- vs. postnatal)] were collected.

Emotional reactions to the diagnosis disclosure were evaluated with a question developed by the authors: "When you learned of your infant's diagnosis, how much did you feel the following emotions?", which was similar to the one used in the study by Petrucelli et al. (1998). However, instead of an ordinal scale, we adopted visual analogue scales (from 0 = I did not feel it at all to 100 = I felt it a lot), in order to assess the presence and magnitude of several emotions at a given time. Visual analogue scales are used to measure constructs that are believed to range in

a continuum of values, rather than in discrete categories (ordinal scales). Based on a literature review of emotional reactions to a DCA (Fonseca & Canavarro, 2010), ten emotions were listed (negative: guilt, anger, sadness, anxiety, shock, despair, shame, frustration; and positive: relief, hope). The alpha coefficient in our sample was .81.

The Portuguese version of the Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18) (Derogatis, 2000) was used to measure psychosymptomatology (5-point Likert scale ranging from 0= *Not at all* to 4= *Extremely*). The Global Distress Index (GDI) was computed based on the sum of the three dimensions of the inventory (anxiety, depression, and somatisation) and was used in our study given its informative value. Cronbach's alpha for the GDI in our sample was .94.

Data Analyses

Analyses were conducted with IBM SPSS, v.19.0. Descriptive statistics were used to characterise the sample and the frequency and intensity of emotional reactions. To calculate the frequency of emotions, responses on visual analogue scales were recoded (*Not felt* = 0; *Felt* = 1–100). To better describe the intensity of emotions (goal one), descriptive statistics were calculated considering only the participants who reported having felt each emotion. Differences in the frequency of emotions were evaluated with Cochran's Q test; post-hoc analyses were conducted with McNemar's test using the Bonferroni correction. Differences in the intensity of emotions were evaluated with a repeated-measures ANOVA complemented with post-hoc tests using the Bonferroni correction.

A hierarchical agglomerative clustering analysis [Furthest Neighbour (Complete Linkage) method] was performed to evaluate the existence of distinct patterns of emotional reactions to the diagnosis. Cluster analysis is an exploratory and multivariate data analysis technique that assembles subjects in homogeneous groups regarding certain common characteristics (in this case, emotional reactions after a DCA). Subjects in the same cluster are similar regarding those characteristics and different from subjects belonging to other clusters. The chi-squared was used to measure the distance between individual observations of the clustering variables (i.e., emotional reactions). The number of clusters was selected based on the rescaled distances evident in the hierarchical cluster dendograms and the percentage change in agglomeration coefficients at each step of the cluster analysis (a substantial increase in the agglomeration coefficient indicates that 2 very different clusters are combined, suggesting it is a stopping point; Hair & Black, 2000). To characterise the cluster solution (i.e., which differences exist between clusters regarding the intensity of emotions), a MANOVA was performed, followed by univariate ANOVAs.

Gender differences of intensity of emotions and psychopathological symptoms (GDI) were assessed using a repeated-measures MANOVA and a paired-samples *t*-test. The couple was considered as a unit (the database was restructured to consider each couple as the subject of the

analysis and each partner's score as a different variable) to account for the interdependency of a couple's observations (as they share the same experience regarding, for example, disclosure of the DCA) and to allow the investigation gender differences within the couple. Gender differences in the number of participants in each cluster were assessed with chi-squared tests. The frequency of both members of the couple belonging to the same clusters was also calculated.

To address the last goal, multiple linear regressions were performed to investigate the role of cluster profiles of intensity of emotions (dummy code: 0: cluster 2; 1: cluster 1) on psychopathological symptoms (GDI) for mothers and fathers.

Significance was defined as $p < .05$, but marginally significant effects are also reported ($p < .10$). Post-hoc power calculations made for all statistical analyses performed with a significance level of .10, and power $\geq .80$ indicated that medium to large effects could be detected (Faul, Erdfelder, & Lang, 2007). Effect-size measures are presented for all significant comparison analyses (small: $\eta^2 \geq .01$, Cohen's $d \geq .20$; medium: $\eta^2 \geq .06$, Cohen's $d \geq .50$; large: $\eta^2 \geq .14$, Cohen's $d \geq .80$; Cohen, 1992).

Results

Characterisation of parental emotional reactions at disclosure

Frequency and intensity of emotions

Table 2 presents descriptive statistics on the frequency and intensity of emotions experienced at the disclosure.

Table 2 | Parental emotional reactions to the disclosure of the DCA: Frequency and intensity

Emotion	Frequency ^a		Intensity ^a
	Felt <i>n</i> (%)	Did not feel <i>n</i> (%)	<i>M</i> (<i>SD</i>)
Guilt	46 (49.5)	47 (50.5)	50.26 (35.41)
Anger	46 (49.5)	47 (50.5)	56.48 (37.59)
Sadness	89 (95.7)	4 (4.3)	83.1 (24.74)
Anxiety	88 (94.6)	5 (5.4)	80.2 (26.14)
Shock	80 (86.0)	23 (14.0)	73.05 (31.52)
Despair	68 (73.9)	24 (26.1)	58.32 (34.79)
Shame	19 (20.4)	74 (79.6)	30.37 (29.09)
Relief	21 (22.6)	72 (77.4)	39.05 (36.95)
Frustration	54 (59.3)	37 (40.7)	64.43 (35.21)
Hope	90 (96.8)	3 (3.2)	78.69 (26.42)

^a*N* = 93

A significant difference was found regarding the frequency of different emotions [Cochran's $Q_{(9)} = 354.05, p < .001$]. Post-hoc analyses (data not shown) revealed that the most frequent emotions were sadness, anxiety, hope, and shock. Less frequently reported than the first set of emotions were despair, and frustration, followed by anger and guilt. A significantly smaller number of participants felt relief and shame, when compared with the first and the second sets of emotions.

Regarding the intensity of emotions, a significant difference was also found [$F_{(9)} = 94.05, p < .001, \eta^2 = .514$]. Post-hoc analyses revealed a pattern similar to that concerning the frequency of emotions: the most frequent emotions were also the most intense ones (data not shown).

Patterns of emotional reactions

A two-cluster solution was selected as better representing the data, generating distinct profiles of intensity of parental emotional reactions (see Table 3). A multivariate effect was found when comparing the intensity of emotions according to cluster profiles (Pillai's Trace = .752, $F_{(10,79)} = 23.992, p < .001, \eta^2 = .752$). Follow-up univariate analyses (Table 3) showed that cluster 1 participants had significantly more-intense negative emotional reactions than the participants of cluster 2. No differences were found in positive emotions (relief and hope). According to their specificities, the two clusters can be identified as "*higher intensity negative reactions*" (cluster 1, $n = 46$) and "*lower intensity negative reactions*" (cluster 2, $n = 44$). Effect size measures indicated that frustration, despair, anger and shock were the emotions that most contributed to group differentiation.

Table 3 | Cluster profiles of parental emotional reactions: Between-groups differences regarding intensity, and frequency by gender

Emotion	Group 1 " <i>Higher intensity negative reactions</i> " ($n = 46$)	Group 2 " <i>Lower intensity negative reactions</i> " ($n = 44$)	$F_{(1,70)}$	p	η^2
	$M (SD)$	$M (SD)$			
Guilt	38.11 (38.22)	10.25 (24.38)	16.822	< .001	.160
Anger	49.85 (41.49)	4.5 (13.56)	47.652	< .001	.351
Sadness	90.67 (15.35)	68.57 (35.07)	15.230	< .001	.148
Anxiety	86.52 (19.20)	65.2 (36.61)	12.119	.001	.121
Shock	83.48 (24.84)	43.05 (39.02)	34.710	< .001	.283
Despair	68.61 (30.23)	16.14 (27.83)	73.222	<.001	.454
Shame	10.11 (19.97)	0.09 (0.473)	11.058	.001	.112
Relief	4.63 (13.83)	13.61 (31.06)	3.189	.078	.035
Frustration	72.48 (31.32)	3.07 (9.09)	199.916	< .001	.694
Hope	71.13 (26.93)	81.82 (30.251)	3.14	.080	.034
Gender	$n (%)$	$n (%)$	χ^2	p	
Female	27 (58.7)	22 (44.9)	.686	.408	
Male	19 (46.3)	22 (53.7)			

Gender differences on parental emotional reactions at disclosure

No gender differences were found regarding the intensity of emotions experienced (Pillai's Trace = .332, $F_{(10,30)} = 1.49$, $p = .191$). No differences were found in the percentage of male and female participants belonging to each cluster (Table 3). In 57.5% of cases, both members of the couple belonged to the same cluster (32.5% to cluster 1; 25% to cluster 2).

Emotional reactions at disclosure and post-diagnosis psychopathological symptoms

Mothers ($M = 18.29$, $SD = 13.77$) presented significantly higher levels of psychopathological symptoms than fathers ($M = 13.07$, $SD = 11.96$), $t_{(40)} = 3.011$, $p = .004$, $d = .40$). For mothers, the model for the GDI was not significant ($F_{(1,46)} = 2.364$, $p = .131$), suggesting that maternal psychopathological symptoms were independent of emotional reactions at the disclosure. Conversely, for fathers, more-intense emotional reactions at disclosure (cluster 1; $\beta = .385$, $t = 2.572$, $p = .014$) were significantly associated with higher levels of psychopathological symptoms ($F_{(1,38)} = 6.617$, $p = .014$, *Adjusted R*² = .126).

Discussion

The present study showed that parents experience negative emotions, and also hope, with great intensity after the disclosure of the DCA. The more frequent and intense negative emotions (shock, sadness, and anxiety, followed by anger, guilt, frustration, and despair) were broadly congruent with acute grief reactions (Statham et al., 2000). This was expected because these emotions represent the parental response to the loss of their representation of a healthy infant. Contrarily, the high frequency and intensity of hope was an unexpected result, considering previous research, and supports the idea of emotional ambivalence at the time of the diagnosis (Graungaard & Skov, 2007). Although parents' hope in the face of a DCA may be interpreted by health professionals as difficulty accepting the diagnosis, some studies with parents of disabled children suggest that hope in the future does not constitute a withdrawal from reality, but an important feature which may be beneficial for parents' healthy functioning and well-being (Kearney & Griffin, 2001; Larson, 1998).

Beyond confirming our first hypothesis, these results also suggest variability in the emotional reactions to the diagnosis. In fact, despite their exploratory nature, our findings suggest that emotional reactions to the diagnosis can be described by two distinct profiles: "*High intensity negative reactions*" and "*Lower intensity negative reactions*". The first profile was characterised by negative emotional reactions of greater intensity, and fits the pattern of acute

grief reactions commonly described in the literature (e.g. Chaplin et al., 2005; Kerr & McIntosh, 1998). Conversely, the "*Lower intensity reactions*" profile was composed of negative reactions of minor intensity, which does not fit the pattern of acute grief reactions. If minor intensity reactions denote the absence of an acute grieving response after the DCA, the conceptualisation of the DCA as a loss may not apply to all parents; this will be a key-dimension in structuring counselling interventions after the DCA and should be further explored. Although it was not the focus of our study, another important issue to be further studied concerns factors (e.g., parity, type of congenital anomaly, socio-demographic characteristics) predicting the variability of parental emotional reactions. This information may help health professionals to better understand emotional reactions at disclosure and also to anticipate how parents will react at disclosure, adjusting their strategies for better communication.

The absence of gender differences in emotional reactions did not support our third hypothesis. This may relate to the fact that the emotional experience of parents (how much they felt each emotion), rather than its manifestations (how much they expressed each emotion), was assessed. This explanation is consistent with gender differences found in psychopathological symptoms. Gender differences found on psychopathological symptoms support the concept of incongruent grief (Goldbach et al., 1991; Lang et al., 2001), which holds that women tend to express more their suffering, with overt manifestations of psychopathological symptoms, while usually display greater emotional control. Considering these results, there is a conclusion that we consider to be essential: gender differences are related not to the way mothers and fathers feel about this event (DCA), but rather to their overt expressions and manifestations about it. This is also consistent with the information that both members of the couple presented similar patterns of emotional reactions in the majority of cases.

Our results also partially confirmed our last hypothesis, showing the influence of higher intensity reactions (cluster 1) on paternal post-diagnosis psychopathological symptoms. For mothers, there seem to be more difficulties in adjustment during the post-diagnosis stage, regardless of their initial reactions. One possible explanation is that usually the mother is more often confronted with problems related to the infant's medical condition (because there may be a greater monitoring of the pregnancy, and because the mother usually is the primary caregiver after the infant's birth; e.g., Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999).

Strengths and limitations

The inclusion of fathers, which allowed us to consider the paternal experience separately, and our quantitative approach, which differentiated between frequency and intensity of emotional experience, make this study a significant contribution to the field. However, some limitations should be acknowledged. The first is the retrospective assessment of emotional reactions to the diagnosis, along with the average return time of the questionnaires, indicating that there was

some variability in the time elapsed after the diagnosis (1 -2 months after the diagnosis), which should be considered. Although the assessment timing was guided by ethical considerations, the possibility remains that parents' answers were influenced by their subsequent reinterpretations of the situation. However, previous research has shown that parents describe their reactions to the diagnosis in great detail, even if retrospectively (Drotar et al., 1975). Additionally, despite some variability in the time elapsed since the diagnosis until the delivery of questionnaires, our results on psychological distress after a DCA are similar to previous studies with assessments at one week (Brosig et al., 2007), one month (Doherty et al., 2009), and 8-10 weeks (Brisch et al., 2003) after the diagnosis. As such, we consider that this variability does not significantly compromise our results.

Second, the use of visual analogue scales to assess parental emotional reactions should be noted. This was due to the absence, to our knowledge, of specific instruments to assess the range of emotions that emerged from the literature review concerning the emotional experience and not its manifestations. Additionally, we did not assess whether participants felt emotions other than those emotions included in our scale. Third, the sample size is small, which may hinder the identification of small effects of variables (e.g., gender). In addition, ethical constraints prevented us from collecting socio-demographic and clinical data (regarding the infant's DCA) of non-participants. As such, despite having used a consecutive sampling technique, it is not possible to completely ensure the representativeness of the sample.

Clinical implications

As most parents are unprepared for receiving the news of a DCA (Lalor & Begley, 2006), they may perceive their emotional reactions at disclosure as frightening and disturbing, and contrasting with the predominantly positive emotions that characterise the birth of an infant. In this context, it may be beneficial to provide psycho-education to parents about the most common emotional reactions to the DCA and their variability, so they can feel validated in their emotional experience.

Despite the predominance of negative emotions, results on hope should not be overlooked. Health professionals should provide factual and truthful information about the DCA, leaving room not only for negative but also for positive parental emotions, like hope or optimism (Kearney & Griffin, 2001), which may constitute a resource that allows parents to continue facing the future (Larson, 1998). The non-recognition by health professionals of the possibility of positive emotions associated with the diagnosis establishes a deterministic view, which can undermine the mobilization of resources to deal with the situation (Dale et al., 2011).

The evaluation of parental emotional reactions at disclosure enables health professionals to adjust their communication strategies to the circumstances, namely regarding the information about the diagnosis. For example, when participants display more-intense emotional reactions, only essential information about the diagnosis should be provided because the ability to retain

and understand information can be disrupted by overly-intense emotions. Other follow-up appointments should be set to provide additional information, to clarify doubts and to seek feedback of what was understood by the parents about the diagnosis (Aite et al., 2004). As this was an unexplored topic, future research should investigate the effectiveness of different health professionals' strategies (e.g., regarding the communication of the DCA, the available time for decisions, and the information provided about the nature of emotional reactions at disclosure) as a function of different patterns of parental emotional reactions after a DCA.

Additionally, although in most couples both members displayed a similar pattern of emotional reactions to the DCA, there were cases where significant differences arose. Considering this, the evaluation of emotional reactions at disclosure also enables the early identification of intra-couple incongruent experiences after a DCA, which may be an additional stressor for couples and should be dealt with. Also, gender differences on psychopathological symptoms can lead to intra-couple difficulties (specifically, women may interpret the fewer psychopathological manifestations of their partners as an absence of suffering). Providing psycho-education about the nature of these differences (i.e., explaining that they are not related with how each one feels about the event, but rather with how each one chooses to manifest their emotions) may constitute an important contribution in helping couples to go through this period in a more adaptive way.

Furthermore, results regarding gender differences indicate that the paternal experience should not be ignored by health professionals. Because fathers are more likely to contain their emotional expression to assume a protective role of their partners (Locock & Alexander, 2006), it is important to assess whether this is hindering proper emotional expression. The opportunity to express emotions in a safe and nonthreatening environment should be given to both parents, as a couple and individually.

Finally, results also suggest that both fathers with high intensity emotional reactions at disclosure and mothers (regardless of their initial reactions) should be given particular attention, as they tend to present more adjustment difficulties in the early post-diagnosis stage, and, as such, are more prone to display a poorer adjustment in later evaluations (e.g., Skari et al., 2006). However, we should note that both emotional reactions at the disclosure and psychopathological symptoms should not be considered as indicators of maladjustment by themselves. They should be considered by health professionals, in the context of a more comprehensive assessment of other individual vulnerability/protective factors for maladjusted responses (e.g., previous history of psychological problems, social support). After a comprehensive assessment, high-risk situations for maladjusted responses should be targeted for specialised counselling.

In conclusion, the results of this study provide a more comprehensive characterisation of emotional reactions to the DCA, stressing its variability, which is reflected in the existence of different patterns of intensity of the reactions. The gender similarities and differences found also underscore the need for health professionals to take into account both the maternal and paternal experiences when adjusting their practice to meet parental needs.

References

- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Casaccia, G., Zaccara, A., Giorlandino, C., & Bagolan, P. (2004). Antenatal diagnosis of diaphragmatic hernia: Parents' emotional and cognitive reactions. *Journal of Pediatric Surgery, 39*(2), 174-178. doi:10.1016/j.jpedsurg.2003.10.010
- Aite, L., Zaccara, A., Nahom, A., Trucchi, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Mothers' adaptation to antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies. *Early Human Development, 82*, 649-653. doi:10.1016/j.earlhumdev.2005.12.010
- Aite, L., Zaccara, A., Trucchi, A., Nahom, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Parents' informational needs at the birth of a baby with a surgically correctable anomaly. *Pediatric Surgery International, 22*, 267-270. doi:10.1007/s00383-005-1631-2
- Boyle, F. M., Vance, J. C., Najman, J. M., & Thearle, M. J. (1996). The mental health impact of stillbirth, neonatal death or SIDS: Prevalence and patterns of distress among mothers. *Social Science and Medicine, 43*(8), 1273-1282. doi:10.1016/0277-9536(96)00039-1
- Brisch, K. H., Munz, D., Bemmerer-Mayer, K., Terinde, R., Kreienberg, R., & Kächele, H. (2003). Coping styles of pregnant women after prenatal ultrasound screening for fetal malformation. *Journal of Psychosomatic Research, 55*, 91-97. doi:10.1016/S0022-3999(02)00572-X
- Brosig, C. L., Whitstone, B. N., Frommelt, M. A., Frisbee, S. J., & Leuthner, S. R. (2007). Psychological distress in parents of children with severe congenital heart disease: The impact of prenatal versus postnatal diagnosis. *Journal of Perinatology, 27*, 687-692. doi:10.1038/sj.jp.7211807
- Chaplin, J. P., Schwitzer, R., & Perkoulidis, S. A. (2005). Experiences of prenatal diagnosis of spina bifida or hydrocephalus in parents who decide to continue with their pregnancy. *Journal of Genetic Counseling, 14*(2), 151-162. doi:10.1007/s10897-005-0488-9
- Cohen, J. (1992). A power prime. *Psychological Bulletin, 112*(1), 155-159. doi:10.1037/0033-2909.112.1.155
- Dale, M. T., Solberg, O., Holmstrom, H., Landolt, M. A., Eskedal, L. T., & Vollrath, M. E. (2011). Mothers of infants with congenital heart defects: Well-being from pregnancy through the child's first six months. *Quality of Life Research*. doi:10.1007/s11136-011-9920-9
- Derogatis, L. R. (2000). *The Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18): Administration, scoring and procedures manual*. Minneapolis, MN: National Computer Systems.
- Doherty, N., McCusker, C., Molloy, B., Mulholland, C., Rooney, N., Craig, B., ... Casey, F. (2009). Predictors of psychological functioning in mothers and fathers of infants born with severe congenital heart disease. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 27*(4), 390-400. doi:10.1080/02646830903190920
- Drotar, D., Baskiewicz, A., Irvin, N., Kennell, J., & Klaus, M. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: A hypothetical model. *Pediatrics, 56*(5), 710-717.

- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2009). *EUROCAT guide 1.3 and reference documents: Instructions for the registration and surveillance of congenital anomalies*. Newtonabbey, County Antrim: EUROCAT Central Registry.
- Faul, F., Erdfelder, E., & Lang, A. G. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods, 39*, 175-191.
- Fonseca, A., & Canavarro, M. C. (2010). Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congénita do bebé: Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde [Parental reactions to perinatal congenital anomaly diagnosis of the baby: Implications for the intervention of health professionals]. *Psicologia, Saúde & Doenças, 11*(2), 281-295.
- Graungaard, A. H., & Skov, L. (2007). Why do we need a diagnosis? A qualitative study of parents' experiences, coping and needs, when the newborn child is severely disabled. *Child: Care, Health & Development, 33*(3), 296-307. doi:10.1111/j.1365-2214.2006.00666.x
- Goldbach, K., Dunn, D., Toedter, L., & Lasker, J. (1991). The effects of gestational age and gender on grief after pregnancy loss. *American Journal of Orthopsychiatry, 61*(3), 461-467. doi:10.1037/h0079261
- Griffin, T. (2002). Supporting families of infants with congenital heart disease. *Newborn and Infant Nursing Reviews, 2*(2), 83-89. doi:10.1053/nbin.2002.33051
- Hair, J. F., & Black, W. C. (2000). Cluster analysis. In L. Grimm, & P. R. Yarnold (Eds.), *Reading and understanding more multivariate statistics* (pp. 147-205). Washington, D.C.: American Psychological Association.
- Howard, E. (2006). Family-centered care in the context of fetal abnormality. *Journal of Perinatal & Neonatal Nursing, 20*(3), 237-242.
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology, 24*(6), 515-520. doi:10.1093/jpepsy/24.6.515
- Johansson, B., & Ringsberg, K. C. (2004). Parents' experiences of having a child with cleft lip and palate. *Journal of Advanced Nursing, 47*(2), 165-173. doi:10.1111/j.1365-2648.2004.03075.x
- Jones, S., Statham, H., & Solomou, W. (2005). When expectant mothers know their baby has a fetal abnormality: Exploring a crisis of motherhood through qualitative data-mining. *Journal of Social Work Research and Evaluation, 62*(2), 195-206.
- Kearney, P., & Griffin, T. (2001). Between joy and sorrow: Being a parent of a child with a developmental disability. *Journal of Advanced Nursing, 34*(5), 582-592. doi:10.1046/j.1365-2648.2001.01787.x
- Kerr, S., & McIntosh, J. (1998). Disclosure of disability: Exploring the perspective of parents. *Midwifery, 14*, 225-232. doi:10.1016/S0266-6138(98)90094-8
- Lalor, J., & Begley, C. (2006). Fetal anomaly screening: What do women want to know? *Journal of Advanced Nursing, 55*(1), 11-19. doi:10.1111/j.1365-2648.2006.03884.x

- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2009). Recasting hope: A process of adaptation following fetal anomaly. *Social Science & Medicine*, *68*, 462-472. doi:10.1016/j.socscimed.2008.09.069
- Lang, A., Gottlieb, L., & Amsel, R. (1996). Predictors of husbands' and wives' grief reactions following infant death: The role of marital intimacy. *Death studies*, *20*, 33-57. doi:10.1080/07481189608253410
- Larson, E. (1998). Reframing the meaning of disability to families: The embrace of paradox. *Social Science & Medicine*, *47*(7), 865-875. doi:10.1016/S0277-9536(98)00113-0
- Locock, L., & Alexander, J. (2006). Just a bystander? Men's place in the process of fetal screening and diagnosis. *Social Science & Medicine*, *62*, 1349-1359. doi:10.1016/j.socscimed.2005.08.011
- Marshak, L. E., & Prezant, F. (2007). *Married with special-needs children: A couples' guide to keeping connected*. Bethesda: Woodbine House.
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M. v., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *6*(102), 102. doi:10.1186/1477-7525-6-102
- Mitchell, L. (2004). Women's experiences of unexpected ultrasound findings. *Journal of Midwifery & Women's Health*, *49*(3), 228-234. doi:10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Nusbaum, R., Grubs, R., Losee, J., Weidman, C., Ford, M., & Marazita, M. (2008). A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *Journal of Genetic Counseling*, *17*, 336-350. doi:10.1007/s10897-008-9152-5
- Petrucelli, N., Walker, M., & Schorry, E. (1998). Continuation of pregnancy following the diagnosis of a fetal sex chromosome abnormality. *Journal of Genetic Counseling*, *7*(5), 410-415. doi:10.1023/A:1022828715158
- Schuth, W., Karck, U., Wilhelm, C., & Reisch, S. (1994). Parents' needs after ultrasound diagnosis of a fetal malformation: An empirical deficit analysis. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, *4*, 124-129. doi:10.1046/j.1469-0705.1994.04020124.x
- Skari, H., Malt, U., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, ..., & Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis*, *26*, 1001-1009. doi:10.1002/pd.1542
- Sommerseth, E., & Sundby, J. (2010). Women's experiences when ultrasound examinations give unexpected findings in the second trimester. *Women and Birth*, *23*, 111-116. doi:10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Statham, H., Solomou, W., & Chitty, L. (2000). Prenatal diagnosis of fetal abnormality: Psychological effects on women in low-risk pregnancies. *Baillière's Clinical Obstetrics and Gynaecology*, *14*(4), 731-747. doi:10.1053/beog.2000.0108
- Taanila, A., Syrjäälä, L., Kokkonen, J., & Järvelin, M.-R. (2002). Coping of parents with physically and/or intellectually disabled children. *Child: Care, Health & Development*, *28*(1), 73-86. doi:10.1046/j.1365-2214.2002.00244.x

Estudo Empírico II

Clinical determinants of parents' emotional reactions to the disclosure of a diagnosis of congenital anomaly

No prelo

Journal of Obstetric, Gynecologic, and Neonatal Nursing

Clinical determinants of parents' emotional reactions to the disclosure of a diagnosis of congenital anomaly

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

Objective: To examine the variability of parents' patterns of emotional reactions (high intensity vs. low intensity) and of the intensity of each emotion when a prenatal or postnatal diagnosis of a congenital anomaly is disclosed, as a function of gender and clinical variables (diagnosis characteristics and obstetric history).

Design: Cross-sectional study.

Setting: Two urban Portuguese hospitals.

Participants: The parents (60 mothers and 50 fathers) of 60 infants prenatally or postnatally diagnosed with a congenital anomaly.

Methods: One month after the disclosure of the diagnosis, the parents answered questionnaires regarding socio-demographic and clinical variables and their emotional experience at the disclosure.

Results: Gender differences in the parents' emotional reactions were not found, and intra-couple congruence was frequent. When there was uncertainty regarding the diagnosis, no prior knowledge about the diagnosis (for fathers only), and no history of pregnancy loss (for mothers only), parents presented significantly more frequently with a pattern of high intensity negative emotional reactions to the disclosure. Type of congenital anomaly, timing of diagnosis, and parity were not found to be significantly associated with the patterns of emotional reactions, but differences in the intensity of specific emotions were found for all variables.

Conclusion: Both parents' emotional experience should be acknowledged at the disclosure. Clinical variables were found to define the stressful situation (the diagnosis). When the diagnosis was perceived as more threatening (i.e., more unexpected, less controllable and predictable), parents presented a pattern of high intensity emotional reactions.

Key-words: clinical variables; congenital anomaly; disclosure; gender differences; parental emotional reactions; prenatal diagnosis; postnatal diagnosis.

Introduction

Congenital anomalies are the leading cause of infant mortality and morbidity (Milunsky & Milunsky, 2010). In Portugal, 119 cases of live births with an identifiable congenital anomaly per 10,000 live births were reported in 2009 (European Surveillance of Congenital Anomalies [EUROCAT], 2012), with only 50.7% being identified during the prenatal period (Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge, 2011). The disclosure of a diagnosis of a congenital anomaly (DCA) is frequently shocking and disrupts the existing parental representations of a perfect and healthy baby (Aite, Zaccara, Nahom et al., 2006), triggering a set of mostly negative emotional reactions in both parents (Statham, Solomou, & Chitty, 2000).

Most existing research has identified a pattern of acute grief reactions in response to the DCA (Statham et al., 2000), characterized by highly intense negative emotions – shock, anxiety, sadness, anger, guilt, despair, and frustration (Chaplin, Schwitzer, & Perkoulidis, 2005; Drotar, Baskiewicz, Irvin, Kennell, & Klaus, 1975). In addition, few studies mention the presence of positive emotions such as relief (Petrucci, Walker, & Schorry, 1998) and hope (Sommerseth & Sundby, 2010). Research shows that both mothers and fathers feel the same emotions at the disclosure; although fathers presented less intense negative emotional reactions than did mothers in some studies (Kerr & McIntosh, 1998; Schuth, Karck, Wilhelm, & Reisch, 1994), others found no gender differences (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2011a).

Despite the description of a common pattern of acute grief reactions to the disclosure of a DCA, some studies have also highlighted the variability of parents' emotional reactions, that is, the possibility that different parents experience distinct emotional reactions (Statham et al., 2000). In fact, a previous study identified two distinct patterns of parental emotional reactions to the disclosure of a DCA: a pattern of higher-intensity negative emotional reactions, which fits the pattern of acute grief reactions described in the literature, and a pattern characterized by lower-intensity negative emotional reactions. These two patterns differed with respect to the intensity of negative emotions but were similar with regard to the intensity of positive emotions (Fonseca et al., 2011a). As the pattern of higher-intensity negative emotional reactions at the disclosure was found to be predictive of both parents' psychopathological symptoms six months after the infant's birth (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2011b), it is important to examine the variability of the parents' emotional reactions when a DCA is disclosed.

Research on this topic has been primarily descriptive, so knowledge is scarce about the factors underlying the variability of parents' emotional reactions to the disclosure of a DCA. In this study, we focused on the variability of these reactions as a function of several clinical variables (DCA characteristics and obstetric history), because these variables are important in defining the stressful situation (Boss, 2002; Rolland, 1999), that is, the occurrence of a DCA.

When considering the characteristics of the DCA, results suggest that parents' emotional reactions do not vary as a function of type of congenital anomaly; although the studies did not

specifically aim to examine this question, the emotions described were similar whether the samples included several types of congenital anomaly (Drotar et al., 1975; Lalor, Begley, & Galavan, 2009; Mitchell, 2004) or just a single specific congenital anomaly (e.g., sex chromosome abnormalities, Petrucelli et al., 1998; cleft lip and palate, Beaumont, 2006). Aite, Zaccara, Nahom et al. (2006) found that the type of congenital anomaly was not related to the presence of negative emotions (sadness, anxiety and anger) in mothers following the disclosure of the diagnosis. However, one study found that parents of infants with congenital heart disease felt higher anxiety, while parents of infants diagnosed with Down syndrome reacted primarily with shock, suggesting that some variability may occur as a function of type of congenital anomaly (Garwick, Patterson, Bennett, & Blum, 1995).

Moreover, the parental emotional reactions to the DCA were similar whether the DCA was disclosed during pregnancy or after the infant's birth (Aite, Zaccara, Nahom et al., 2006; Beaumont, 2006; Nusbaum et al., 2008). However, when the diagnosis is prenatal, parents may receive less information (e.g., regarding treatment options, often available only after the infant's birth; Statham et al., 2000), which may intensify their anxiety, despair and frustration when the diagnosis is disclosed. On the other hand, as parents may feel reassured about the infant's health due to normal prenatal examinations (Aite et al., 2003), the postnatal DCA may be perceived as more unexpected for parents, leading to more intense reactions of shock.

Often, when parents first learn of their infant's DCA, they have no prior knowledge about the diagnosis. When the DCA is disclosed, they are faced with a great deal of new and sometimes difficult-to-understand information, which can intensify their reactions of anxiety and shock (Aite et al., 2004; Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006).

Furthermore, the degree of uncertainty associated with the DCA and its prognosis is also an important DCA characteristic, because it is associated with the inability to determine the meaning of illness-related events and can influence the individual's psychological adaptation (Mishel, 1988, 1990). Research has shown that when great diagnostic uncertainty is perceived, mothers tend to report more difficulties in attaching meaning to the diagnosis (Lalor, Begley, & Galavan, 2008; Lalor et al., 2009) and manifest greater levels of anxiety (Kemp, Davenport, & Pernet, 1998). Aite et al. (2009) found that maternal anxiety after a prenatal DCA was associated more strongly with the uncertainty regarding the clinical development and prognosis rather than with the objective medical severity of the DCA, suggesting that a great degree of uncertainty may be related to higher-intensity negative emotional reactions.

Finally, obstetric history can also be considered an important factor in the variability of emotional reactions. To our knowledge, the effect of parity has not been investigated. However, women with a previous healthy pregnancy may be more confident about the infant's health, leading to greater unexpectedness of the DCA (Lalor & Begley, 2006) and, thus, more intense negative emotional reactions. Additionally, a history of pregnancy loss has been associated with more frequent reactions of sadness and anger when the diagnosis is disclosed (Aite, Zaccara, Nahom et al., 2006), which may be related to the cumulative effect of negative reproductive

experiences within the couple. However, prior negative reproductive experiences may be associated with more highly negative expectations regarding the current pregnancy and infant's health (e.g., DeBackere, Hill, & Kavanaugh, 2008), which may lead to less shocking reactions when a DCA is disclosed.

Conceptual framework

The occurrence of a DCA may be a stressful event for the family, as it affects the entire family system (Boss, 2002; Seligman & Darling, 2007). As the detrimental effects of intra-couple incongruent reactions to stressful events are well-documented (Marshak & Prezant, 2007), it is essential to examine the effects of the occurrence of a DCA in both parents, as well as the intra-couple congruence in emotional reactions.

In addition, according to the Family Stress Adaptation Theory (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983), the familial response to a stressor event depends on its characteristics, the family's perception of the event, and the family's resources. The characteristics of the stressor event include the degree to which it is normative and predictable (e.g., transition to parenthood) or unexpected (e.g., illness in one family member) or the degree to which it is clear or ambiguous (facts about the situation are unavailable or unclear; Boss, 2002). Depending on these characteristics, family members build a perception of the event as more or less threatening, which may influence their emotional responses and the resources and coping strategies activated by them to address the stressor event (Boss, 2002).

Given this conceptual framework, the present study aimed to: 1) investigate intra-couple congruence in the emotional reactions to the disclosure of a DCA; 2) examine the variability of the maternal and paternal emotional reactions as a function of the characteristics of the stressor event, that is, clinical variables (DCA characteristics – type of congenital anomaly, timing of DCA, prior knowledge of the DCA, and uncertainty regarding the DCA; couple's obstetric history – parity, history of pregnancy loss). The variability of parents' emotional reactions to the disclosure of a DCA was analyzed in terms of both the patterns of intensity of negative emotional reactions (higher vs. lower) and the intensity of the different emotions.

We established the following hypotheses: 1) Mothers and fathers will present similar and congruent emotional reactions within the couple; 2) The parents' emotional reactions will not vary as a function of type of congenital anomaly; 3) The parents' emotional reactions will not vary as a function of timing of the DCA; 4) Parents with no prior knowledge about the DCA will present more intense negative emotional reactions than will parents with prior knowledge about the DCA; 5) Parents who perceive uncertainty regarding the DCA will present more intense negative emotional reactions than will parents who perceive certainty regarding the DCA; 6) Parents with previous children will present more intense negative emotional reactions than will parents with no previous children. No hypothesis was presented for history of pregnancy loss, given the inconsistency of the existing results.

Methods

Participants and procedure

This study was approved by the Ethics Committees of two Portuguese hospitals (Hospitais da Universidade de Coimbra and Centro Hospitalar de Coimbra). The inclusion criteria for this study were as follows: having an infant with a prenatally or postnatally reported DCA, without the occurrence of perinatal death or termination of pregnancy for fetal anomaly; being at least 18 years old; and having a literacy level that allowed for the comprehension of the assessment protocol.

The sample collection took place between September 2009 and September 2011. Approximately one month ($M = 34.23$ days) after the disclosure of the DCA, all parents were informed of this investigation by the medical team at the end of a medical appointment and their authorization was sought to be contacted personally by the researchers. Consecutive sampling was used; all accessible subjects who met the inclusion criteria were included. The research goals were presented to all contacted parents, and an informed consent form was signed by those parents who agreed to participate. The informed consent offered information on the following: 1) the research goals; 2) the voluntary nature of participation in the study, free of charge; 3) the possibility of withdrawing from the study without affecting their medical care; and 4) the guarantee of confidentiality. The participants were then given the questionnaires and were asked to return them to the researchers at their next medical appointment.

The researchers invited 82 couples, of which 22 refused to participate or did not return the questionnaires (participation rate = 73.2%; average time until return: $M = 22.97$ days, $SD = 13.63$). The questionnaires were returned only by women in 10 cases (16.7%). The sample was comprised of parents of 60 infants with a prenatal or postnatal DCA – 60 (54.5%) mothers and 50 (45.5%) fathers. The socio-demographic and clinical characteristics are presented in Table 1. Mothers and fathers had similar socio-demographic characteristics with the exception of educational level: mothers had a higher educational level than did fathers.

Measures

The participants completed a socio-demographic form soliciting gender, age, marital status, educational level, and professional status and a clinical information form.

The clinical information form asked about obstetric history (parity and history of pregnancy loss) and about DCA characteristics, namely: a) type of congenital anomaly; b) timing of the DCA; c) prior knowledge about the DCA (*"Have you ever heard of the congenital anomaly diagnosed in your infant?"*, yes or no); d) degree of certainty regarding the DCA [*"What was the certainty level of your infant's diagnosis?"* with four response options which were grouped by the researchers in two categories – certainty (*"both the DCA and its prognosis were well identified"*)

and uncertainty (*"the DCA was well identified, but there was no absolute certainty regarding its prognosis (although the main consequences were identified); the DCA was well identified, but there was no certainty regarding its prognosis; there was no absolute certainty regarding the DCA or its prognosis"*)].

Table 1 | Sample socio-demographic and clinical characteristics

Socio-demographic characteristics	Mothers ^a	Fathers ^b	<i>t</i>
	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	
Age (years)	31.22 (4.83)	32.66 (4.99)	-1.54
Educational level (years)	14.27 (3.39)	12.22 (3.36)	3.14*
	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	χ^2
<i>Marital status</i>			
Married/Living together	54 (90.0)	47 (94.0)	0.58
Single/Divorced	5 (10.0)	3 (6.0)	
<i>Professional status</i>			
Employed	50 (83.3)	47 (94.0)	2.98
Unemployed	10 (16.7)	3 (6.0)	
Clinical variables		Mothers ^a	
Obstetric history		<i>n (%)</i>	
<i>Parity</i>			
Primiparity		29 (48.3)	
Multiparity		31 (51.7)	
<i>History of pregnancy loss</i>			
Yes		11 (18.3)	
No		49 (81.7)	
DCA characteristics		Infants' data ^a	
		<i>n (%)</i>	
<i>Timing of DCA</i>			
Prenatal		41 (68.3)	
Postnatal		19 (31.7)	
<i>Type of congenital anomaly</i>			
Congenital heart disease		17 (28.3)	
Nervous system anomalies		9 (15.0)	
Digestive system anomalies		6 (10.0)	
Urinary system anomalies		16 (26.7)	
Oro-facial clefts		7 (11.7)	
Limb anomalies		5 (8.3)	
<i>(Un)certainty regarding the DCA</i>			
Certainty		19 (31.7)	
Uncertainty		41 (68.3)	
	Mothers ^a	Fathers ^b	χ^2
	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	
<i>Prior knowledge of the DCA</i>			
Yes	25 (41.7)	19 (38.0)	0.15
No	35 (58.3)	31 (62.0)	

^a *n* = 60. ^b *n* = 50.

* *p* < .01.

Congenital anomalies were categorized according to the EUROCAT Categorization scheme (EUROCAT, 2009). Given the low frequency of some congenital anomalies in our sample, and for purposes of analyses, the congenital anomalies were grouped into four categories: congenital heart diseases, urinary system anomalies, visible malformations (oro-facial clefts and limb anomalies), and other anomalies (digestive system and nervous system anomalies).

Emotional reactions to the diagnosis were evaluated with the question used by Petrucelli et al. (1998): *"When you learned of your infant's diagnosis, how much did you feel the following emotions?"*. However, instead of an ordinal scale, we adopted visual analogue scales (from 0 = *I did not feel it at all* to 100 = *I felt it a lot*), to assess the presence and magnitude of several emotions at a given time. A visual analogue scale is a horizontal line of a given length (usually 100 mm) with verbal labels at each extreme; participants mark the position on the line that best describes their response, and the distance from the beginning of the line to the participant's mark is used as their score. The list of emotions was chosen based on a literature review of emotional reactions to a DCA (Fonseca & Canavarro, 2010). Ten emotions were listed (negative: guilt, anger, sadness, anxiety, shock, despair, shame, frustration; and positive: relief, hope). The alpha coefficient in our sample was .81.

Data Analyses

Analyses were conducted with SPSS, v. 19.0. Descriptive statistics were used for characterization purposes. Socio-demographic characteristics of mothers and fathers were compared with *t*-tests (continuous variables) and chi-squared tests (categorical variables).

The participants' classification into the two patterns of emotional reactions ("higher-intensity negative emotional reactions" and "lower-intensity negative emotional reactions"; Fonseca et al., 2011a), was performed with a K-means cluster analysis, asking for a two-cluster solution. This technique of cluster analysis is called for when there are prior hypotheses regarding the number of clusters to form.

Regarding the first hypothesis, chi-squared tests were used to examine gender differences and similarities in the patterns of emotional reactions. To analyze intra-couple congruence, the frequency of cases in which both partners within the couple had congruent or incongruent patterns of emotional reactions was calculated. To examine gender differences and similarities regarding the intensity of the different emotions, a repeated-measures MANOVA was used (with gender as a within-subjects factor), followed by univariate ANOVAs. Intra-couple congruence in the intensity of the different emotions was examined using bivariate Pearson correlations.

Regarding the remaining hypotheses, we used chi-squared tests to examine the variability of the patterns of emotional reactions as a function of the different clinical variables. When considering the intensity of the different emotions, differences were examined using the Kruskal-Wallis test (for the type of congenital anomaly, followed by post-hoc Mann-Whitney tests with Bonferroni correction when the effect was significant) and Mann-Whitney tests (for the remaining

variables). Non-parametric tests were used because the necessary assumptions for using parametric tests were not met. Because of the interdependence of the intra-couple observations, which could bias the results, these analyses were conducted separately for mothers and fathers.

Significance was defined as $p < .05$, but marginally significant effects ($p < .10$) are also reported. Post-hoc calculations for the comparison analyses performed with a significance level of .10 and power $\geq .80$ indicated that small effects ($f^2 \geq .17$) could be detected with MANOVA and medium to large effects ($d \geq .57$) could be detected with non-parametric tests (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007).

Results

Gender differences and intra-couple congruence of emotional reactions to the disclosure of a DCA

Individuals were clustered in the "higher-intensity negative emotional reactions" cluster or in the "lower-intensity negative emotional reactions" cluster, based on their emotional reactions. Table 2 presents the cluster membership and the average intensity of the different emotions felt by mothers and fathers when the DCA was disclosed.

Table 2 | Gender differences on cluster membership and average intensity of the parents' emotional reactions at the disclosure of a DCA

Cluster membership	Mothers ^a	Fathers ^b	χ^2
	<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)	
Higher-intensity	32 (57.1)	24 (42.9)	0.31
Lower-intensity	28 (51.9)	26 (48.1)	
Emotions	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>F</i>
Guilt	31.52 (36.99)	16.16 (30.24)	6.83*
Anger	24.26 (36.26)	24.20 (38.08)	0.00
Anxiety	77.12 (31.35)	73.84 (32.16)	0.94
Sadness	81.40 (30.47)	77.34 (30.10)	0.58
Shock	68.22 (37.33)	58.58 (39.94)	2.85
Despair	49.12 (39.64)	39.42 (39.25)	2.79
Shame	8.68 (21.45)	3.98 (12.91)	2.09
Frustration	38.04 (40.39)	34.80 (48.82)	0.33
Relief	7.78 (23.39)	10.26 (24.25)	0.58
Hope	74.58 (29.73)	79.22 (27.87)	1.33

^a *n* = 60. ^b *n* = 50.

* $p < .05$.

As shown in Table 2 and confirming our first hypothesis, there were no gender differences in the percentage of male and female participants within each cluster. Within the couple, in 72% ($n = 36$) of cases both partners had similar patterns of emotional reactions, suggesting intra-couple congruent emotional reactions; of these cases, both partners presented high intensity negative emotional reactions in 18 (50%) cases.

The multivariate effect of gender on the intensity of the different emotions was also not significant (Pillai's Trace = .311, $F_{10,40} = 1.67$, $p = .126$, $\eta^2 = .311$). Univariate tests showed that mothers presented only higher levels of guilt than did fathers. The intensity of the maternal and paternal emotions was significantly but only moderately correlated (r -values ranged from .25 to .54).

Clinical variables as correlates of maternal and paternal emotional reactions to the disclosure of a DCA

Next, the variability of parents' emotional reactions as a function of clinical variables was explored. Analyses were conducted separately for mothers and fathers.

Type of congenital anomaly

The type of congenital anomaly was not significantly associated with the maternal ($\chi^2 = 1.87$, $p = .600$) or paternal ($\chi^2 = 2.47$, $p = .481$) patterns of emotional reactions to the disclosure of a DCA, confirming our second hypothesis. However, when considering the intensity of the different emotions, some differences were found as a function of the type of congenital anomaly. For mothers, the type of congenital anomaly was associated with significant differences in the intensity of the following emotions: guilt ($\chi^2 = 9.52$, $p = .023$), anger ($\chi^2 = 9.41$, $p = .023$), and sadness ($\chi^2 = 8.98$, $p = .03$). Post-hoc analyses showed that mothers whose infants were diagnosed with a urinary system anomaly showed significantly more anger ($M = 45.6$, $SD = 43.9$) than did mothers whose infants were diagnosed with a congenital heart disease ($M = 11.7$, $SD = 31.4$, $Z = -2.68$, $p = .007$) and significantly more guilt ($M = 54.5$, $SD = 36.7$) than did mothers whose infants were diagnosed with a visible malformation ($M = 11.2$, $SD = 25.4$; $Z = -2.85$, $p = .004$). In addition, mothers whose infants were diagnosed with a visible malformation felt significantly less sadness ($M = 55.2$, $SD = 41.4$) than did mothers whose infants were diagnosed with other malformations ($M = 95.0$, $SD = 10.3$; $Z = -2.84$, $p = .004$). Conversely, the type of congenital anomaly was not associated with significant differences in the intensity of the different emotions, for fathers.

Timing of the DCA

Confirming our third hypothesis, the timing of the DCA (prenatal vs. postnatal) was not significantly associated with the maternal ($\chi^2 = 1.41, p = .235$) or paternal ($\chi^2 = 0.64, p = .423$) patterns of emotional reactions to the disclosure of a DCA. However, when considering the intensity of the different emotions, we found some differences for mothers only. Mothers who learned of their infant's DCA during the prenatal period felt significantly more anger ($M = 36.1, SD = 40.9; Z = -2.87, p = .004$) and sadness ($M = 88.1, SD = 23.5, Z = -2.01, p = .044$) than mothers whose infant's DCA was disclosed after birth (anger: $M = 6.79, SD = 22.8$; sadness: $M = 71.5, SD = 36.3$). On the other hand, for fathers, no significant differences were found in the intensity of the different emotions as a function of the timing of the DCA.

Prior knowledge about the DCA

Table 3 presents the frequency of patterns of emotional reactions and the average intensities of the different emotions as a function of having or not having prior knowledge about the DCA.

Table 3 | Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of prior knowledge about the DCA

Cluster	Mothers ^a		χ^2	Fathers ^b		χ^2
	No prior knowledge	Prior knowledge		No prior knowledge	Prior knowledge	
	<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)		<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)	
High-intensity	17 (53.1)	15 (46.9)	0.77	18 (75.0)	6 (25.0)	3.31 [†]
Low-intensity	18 (64.3)	10 (35.7)		13 (50)	13 (50)	
Emotions	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>
Guilt	25.1 (34.6)	43.6 (41.5)	-2.18 [*]	13.5 (27.8)	20.6 (34.2)	-0.69
Anger	23.6 (37.9)	31.2 (39.7)	-1.08	26.1 (38.8)	23.5 (37.7)	-0.02
Sadness	86.4 (25.6)	77.8 (32.9)	-0.57	83.4 (24.8)	67.1 (35.6)	-1.84 [†]
Anxiety	81.6 (32.7)	77.1 (25.8)	-1.56	76.8 (31.6)	69.1 (33.3)	-1.35
Shock	67.2 (36.6)	71.4 (35.4)	-0.40	71.5 (33.8)	37.6 (41.1)	-2.79 ^{**}
Despair	45.2 (39.2)	57.1 (41.5)	-1.33	29.3 (36.3)	39.4 (39.2)	-1.58
Shame	8.5 (24.2)	13.5 (28.4)	-1.81 [†]	4.1 (13.8)	3.8 (11.7)	-0.42
Frustration	28.3 (38.3)	56.1 (41.9)	-2.75 ^{**}	41.4 (44.0)	24.1 (33.3)	-1.10
Relief	10.3 (27.6)	9.6 (26.2)	-0.76	13.9 (28.9)	4.3 (12.2)	-0.82
Hope	78.4 (30.2)	73.4 (28.3)	-0.74	84.2 (19.9)	71.1 (36.6)	-1.13

^a *n* = 60. ^b *n* = 50.
[†] *p* < .10. ^{*} *p* < .05. ^{**} *p* < .01.

As shown in Table 3, our fourth hypothesis was only confirmed for fathers: they presented a pattern of higher-intensity negative emotional reactions more frequently when they had no prior knowledge of the DCA; no significant effect was found for mothers.

However, some differences were found for mothers and fathers when considering the intensities of the different emotions. As shown in Table 3, mothers who had prior knowledge about the DCA felt significantly more guilt and frustration than did mothers who had no prior information about the DCA. On the other hand, the fathers who had prior knowledge about the DCA presented significantly less intense shock than did fathers who had no prior knowledge about the DCA.

(Un)certainty regarding the DCA

Table 4 presents the frequency of patterns of emotional reactions and the average intensity of the different emotions as a function of the degree of uncertainty regarding the DCA. The results confirmed our fifth hypothesis for both mothers and fathers: uncertainty regarding the DCA was significantly associated with a pattern of higher intensity emotional reactions at the disclosure.

Table 4 | Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of (un)certainty regarding the DCA

Cluster	Mothers ^a		χ^2	Fathers ^b		χ^2
	Uncertainty <i>n</i> (%)	Certainty <i>n</i> (%)		Uncertainty <i>n</i> (%)	Certainty <i>n</i> (%)	
High-intensity	25 (78.1)	7 (21.9)	3.04 [†]	19 (79.2)	5 (20.8)	4.61 [*]
Low-intensity	16 (57.1)	12 (42.9)		13 (50.0)	13 (50.0)	
Emotions	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>
Guilt	39.4 (41.4)	18.7 (26.6)	-1.24	15.6 (28.6)	17.2 (33.9)	-0.30
Anger	32.5 (40.1)	14.4 (32.3)	-2.00 [*]	29.8 (38.4)	16.8 (37.0)	-2.03 [*]
Sadness	88.9 (22.1)	69.6 (37.2)	-1.93 [*]	81.6 (25.6)	69.8 (36.4)	-0.85
Anxiety	89.4 (27.8)	72.0 (33.3)	-1.08	73.4 (33.5)	74.7 (37.2)	-0.05
Shock	73.0 (34.4)	60.4 (38.3)	-1.01	68.1 (38.8)	41.7 (37.2)	-2.37 [*]
Despair	55.4 (39.1)	38.9 (41.7)	-1.23	44.0 (39.8)	31.3 (37.9)	-1.24
Shame	14.2 (30.4)	2.8 (7.6)	-1.36	5.5 (15.8)	1.2 (3.6)	-0.91
Frustration	45.1 (43.1)	28.7 (37.6)	-1.33	38.8 (42.9)	27.6 (36.9)	-1.05
Relief	13.7 (31.6)	2.2 (6.3)	-1.23	12.7 (27.1)	5.9 (18.0)	-1.12
Hope	75.7 (28.7)	77.7 (31.3)	-0.56	81.3 (25.1)	75.6 (32.7)	-0.39

^a *n* = 60. ^b *n* = 50.
[†] *p* < .10. ^{*} *p* < .05.

In addition, when considering the intensity of the different emotions, it was found that mothers whose infants' DCA had some degree of uncertainty felt significantly more anger and sadness than did mothers whose infants' DCA had been clearly identified (see Table 4). Moreover, fathers whose infants' DCA had some degree of uncertainty felt significantly more shock than did fathers whose infants had a clearly identified DCA (see Table 4).

Parity

Our results did not confirm our sixth hypothesis. We found that the existence of previous positive reproductive experiences (previous healthy children) was not significantly associated with the patterns of emotional reactions for mothers ($\chi^2 = 0.06, p = .809$) or for fathers ($\chi^2 = 0.01, p = .982$). However, some differences in the intensity of the different emotions as a function of parity were found, only for mothers. Specifically, mothers who had other children felt significantly more hope ($M = 82.7, SD = 25.5, Z = -1.89, p = .059$) but less anger ($M = 21.0, SD = 37.9, Z = -2.13, p = .033$) than did primiparous mothers (hope: $M = 69.5, SD = 31.9$; anger: $M = 32.9, SD = 38.8$).

History of pregnancy loss

Table 5 presents the frequency of patterns of emotional reactions and the average intensity of the different emotions as a function of history of pregnancy loss.

Table 5 | Variability of maternal and paternal emotional reactions as a function of history of pregnancy loss (presence vs. absence)

Cluster	Mothers ^a		χ^2	Fathers ^b		χ^2
	History of pregnancy loss <i>n</i> (%)	No history of pregnancy loss <i>n</i> (%)		History of pregnancy loss <i>n</i> (%)	No history of pregnancy loss <i>n</i> (%)	
High-intensity	3 (9.4)	29 (90.6)	3.68 [†]	6 (25.0)	18 (75.0)	1.53
Low-intensity	8 (28.6)	20 (71.4)		3 (11.5)	23 (88.5)	
Emotions	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>Z</i>
Guilt	25.1 (36.0)	34.6 (39.0)	-0.68	17.3 (33.7)	15.9 (29.9)	-1.45
Anger	14.0 (32.2)	29.7 (39.5)	-1.61	27.9 (41.6)	23.4 (37.8)	-0.21
Sadness	72.9 (37.4)	85.0 (26.6)	-0.48	82.9 (23.8)	76.1 (31.4)	-0.08
Anxiety	75.3 (35.6)	80.8 (28.8)	-0.07	81.8 (21.2)	72.1 (34.1)	-0.47
Shock	53.6 (44.6)	72.5 (33.2)	-1.08	66.1 (40.5)	56.9 (40.1)	-0.15
Despair	24.7 (36.0)	55.9 (39.3)	-2.34 [*]	45.3 (33.1)	38.1 (40.7)	-0.79
Shame	10.6 (29.9)	10.6 (25.3)	-0.01	7.0 (16.5)	3.3 (12.1)	-1.90
Frustration	16.1 (31.7)	45.2 (42.2)	-2.12 [*]	41.2 (36.5)	33.4 (42.0)	-0.24
Relief	12.9 (30.0)	9.4 (26.3)	-0.97	19.2 (23.9)	8.3 (24.2)	-1.96 [*]
Hope	77.2 (41.0)	76.1 (26.6)	-1.04	55.7 (30.5)	84.4 (24.8)	-2.00 [*]

^a *n* = 60. ^b *n* = 50.
[†] $p < .10$. ^{*} $p < .05$.

As shown in Table 5, mothers who had a history of pregnancy loss presented a pattern of low-intensity negative emotional reactions at the disclosure of a DCA significantly more frequently, but no significant effect was found for fathers.

However, when considering the intensity of the different emotions, differences were found as a function of history of pregnancy loss for both mothers and fathers. Mothers with a

history of pregnancy loss experienced significantly less despair and frustration than did mothers without a history of pregnancy loss. Conversely, when there was a history of pregnancy loss in the couple, fathers experienced significantly more relief and significantly less hope than did fathers with no history of pregnancy loss.

Discussion

This study adds to the existing knowledge about parents' emotional reactions when they first learn of their infant's DCA. This topic has been investigated very little, despite its importance; initial reactions to the disclosure of a DCA may influence the way parents understand the information given and, consequently, the way they address it (Abramsky, Hall, Levitan, & Marteau, 2001; Aite, Zaccara, Trucchi et al., 2006).

First, our results showed that mothers and fathers had a similar emotional experience in response to a DCA and that intra-couple congruence was highly frequent. In addition to both members of the couple going through the same experience (the occurrence of a DCA in their infant), there are mutual influences within the couple (Cook & Kenny, 2005); that is, the reactions of one member of the couple influence the reactions of the other member and vice-versa. These results confirm that both parents' experiences should be recognized, and that the paternal experience should not be neglected after a prenatal or postnatal DCA.

Second, the clinical variables (DCA characteristics and obstetric history) were found to influence the initial emotional reactions to the DCA for both mothers and fathers. Specifically, some clinical variables were associated with a significantly higher likelihood of parents presenting a pattern of higher intensity negative emotional reactions at the disclosure of the DCA: uncertainty regarding their infant's DCA, for both mothers and fathers; having no prior knowledge about the DCA, for fathers; and having no history of pregnancy loss, for mothers. The remaining clinical variables (type and timing of the DCA and parity) were not predictive of the patterns of emotional reactions for either gender. However, differences in the intensity of specific emotions were found for all clinical variables.

In fact, confirming our second hypothesis and in accordance with the existing research on this topic (Lalor et al., 2009; Mitchell, 2004), parents of infants diagnosed with different types of congenital anomalies presented mostly similar emotional reactions to the disclosure of the DCA. Overall, these results support a non-categorical approach to the understanding of the familial impact of the DCA, that is, an approach that seeks to consider the common impact of having a child with a medical condition (in this case, a congenital anomaly; Silver, Westbrook, & Stein, 1998).

Similarly, the timing of the DCA was not predictive of different patterns of emotional reactions for mothers or fathers, consistent with previous research (Nusbaum et al., 2008) and

confirming our third hypothesis. However, differences in the intensity of some maternal emotions were found: mothers whose infant's DCA was disclosed during pregnancy felt more anger and sadness than did mothers whose infant's DCA was disclosed after birth. It is possible that mothers whose infant's DCA is disclosed during pregnancy may perceive that their body failed in its role of protecting the baby (Mander, 2005), and have difficulty in dealing with the lack of information until the infant's birth (Statham et al., 2000), intensifying their anger and sadness.

Moreover, our results regarding prior knowledge about the DCA confirmed our fourth hypothesis, for fathers only. Fathers who had no prior knowledge about the DCA may perceive it as more unexpected, because they were unaware of the condition and/or of the possibility that the condition could be diagnosed in the prenatal or postnatal period. They also may have no expectations regarding the future implications of the DCA and are confronted with complex information (Aite et al., 2004), which can contribute to an appraisal of the situation as more demanding and less controllable and, thus, may translate into a pattern of higher-intensity negative emotional reactions at the disclosure of a DCA. However, a different pattern was found for mothers. Our results showed that mothers with prior knowledge about the DCA felt significantly more guilt and frustration than did mothers without prior knowledge about the diagnosis. On the one hand, mothers with prior knowledge about the DCA may be more aware of its implications and prognosis, which may intensify their negative emotions. On the other hand, those mothers' feelings of guilt may be related with their perception of failure in protecting their infant (Mander, 2005) when they had prior knowledge about the DCA (e.g., its causes), even though they could not do anything to prevent the congenital anomaly (maternal self-blame; Danseco, 1997). However, this hypothesis should be further explored.

In addition, and confirming our fifth hypothesis, the perceived uncertainty regarding the DCA was significantly predictive of a pattern of higher intensity negative emotional reactions for both mothers and fathers. Uncertainty regarding the condition contributes to an appraisal of the situation as being more undefined and unpredictable and, consequently, less controllable (Aite et al., 2009). This effect may prevent parents from clearly defining strategies to cope with the diagnosis (Lipinski, Lipinski, Biesecker, & Biesecker, 2006), and thus create expectations of worse outcomes, leading to higher-intensity negative emotional reactions at the disclosure.

Finally, we investigated the role of obstetric history in the maternal and paternal emotional reactions to the disclosure of a DCA. We hypothesized that prior reproductive experiences help parents to develop expectations regarding the current reproductive experience. Regarding parity, our results did not confirm our sixth hypothesis. Having previous healthy children was not significantly associated with a pattern of higher-intensity negative emotional reactions for either mothers or fathers. In fact, mothers with previous healthy children felt significantly more hope and less anger than did primiparous mothers; we hypothesize that mothers with previous children may have a more positive perception about their future care of a child with a DCA. This hypothesis should be further explored.

In addition, our results showed that mothers with prior negative reproductive experiences (history of pregnancy loss) presented a pattern of lower-intensity negative emotional reactions at the disclosure of a DCA more frequently, which is contrary to the results found by Aite, Zaccara, Nahom et al. (2006). Mothers with prior negative reproductive experiences may have developed more negative expectations regarding the current pregnancy outcomes (e.g., that something might be wrong with the infant) and consequently, may perceive the disclosure of a DCA as less unexpected than would mothers without a history of pregnancy loss, leading to less intense negative emotional reactions. Conversely, a different pattern of results was found for paternal emotional reactions to the disclosure of a DCA. Although a history of pregnancy loss was not significantly associated with a pattern of low-intensity negative emotional reactions for fathers, we found that fathers with prior negative reproductive experiences felt more relief at the disclosure than did fathers with no history of pregnancy loss. As fathers with pregnancy loss history may have developed negative expectations regarding the current pregnancy outcomes, they may feel some relief at the disclosure, because they appraise the current situation (the occurrence of a DCA) as not as bad as their prior situation (pregnancy loss). In addition, fathers with a history of pregnancy loss felt less hope than did fathers with no history of pregnancy loss; given their prior negative experience, they may have more difficulty in developing positive expectations regarding the DCA outcomes. These hypotheses should be further explored.

In conclusion, two main findings summarize our results concerning the influence of clinical variables in parents' emotional reactions. First, the clinical variables are important because they define the stressor event, that is, the occurrence of a DCA. Second, the clinical variables that most strongly influenced the parents' emotional reactions were those that define the stressor event in terms of its level of unexpectedness (e.g., prior negative reproductive experiences, prior knowledge about the DCA) and its level of ambiguity/unpredictability (e.g., (un)certainly regarding the DCA). As mentioned by Boss (2002), depending on the characteristics of the stressor event, the parents will develop an appraisal of it as more or less threatening. When the DCA is more unexpected and less predictable, it may lead to a parental appraisal of the DCA as more threatening, less controllable, more demanding, and more difficult to cope with (Lipinski et al., 2006), which may translate into the parents' higher-intensity negative emotional reactions when they first learn of their infant's DCA. Additionally, the parental appraisal of the DCA may influence the resources that parents will activate to address it (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983). Thus, the clinical variables are extremely important when considering the familial response to their infant's DCA and should be taken into account by health professionals.

Despite the exploratory nature of our study, the inclusion of both mothers and fathers and its quantitative approach are important methodological contributions to the field and allow for some interesting findings. However, this study has some limitations that should be acknowledged: 1) the reduced sample size, especially when assessing the effect of the type of congenital anomaly; 2) the retrospective assessment of emotional reactions, due to ethical considerations, although research highlights that parents can retrospectively describe their

reactions at the disclosure in great detail (Drotar et al., 1975); and 3) the assessment of emotional reactions by a specific question responded to by means of visual analogue scales, which need further validation, instead of using an instrument measuring grief reactions, due to the absence, to our knowledge, of specific instruments focused on assessing the range of both negative and positive emotions (e.g., hope) that emerged from the literature review, and on the emotional experience, rather than its manifestations. Future studies should try to overcome these limitations and should further explore the relationship between clinical variables, parental perceptions about the DCA, and family resources to address with the infant's DCA. The replication of these results in other cultural contexts should also be explored.

Finally, our results allow us to draw some clinical implications. First, clinical variables (DCA characteristics and obstetric history) may help health professionals to identify parents who are more likely to experience high intensity negative emotional reactions when the DCA is disclosed. Appropriate time and space to express their emotions should be provided to all parents after the disclosure. However, parents who present higher intensity emotional reactions should be the focus of particular attention; while negative reactions are normative, more intense responses may hinder the understanding and the decision-making processes associated with the diagnosis (Aite et al., 2004) and are related to subsequent adjustment difficulties (Fonseca et al., 2011a). Parents should also be encouraged to share their appraisal of the DCA (stressful situation) with each other and with health professionals. When a higher threat is perceived (e.g., the DCA is perceived as less controllable, more unexpected, and more demanding), some strategies should be used to help parents cope with the situation: a) assess parents' information needs and provide specific and clear information (e.g., written information, information from other sources, Lipinski et al., 2006); b) assess parents' expectations related to caretaking tasks and provide adequate support in the parents' development of specific caretaking skills that are perceived as demanding (e.g., feeding an infant with a oro-facial cleft); c) help parents to be aware of the short-term implications of the DCA (e.g., treatment options); and d) develop strategies to cope with the intense emotional reactions, namely promote the balance between emotional expression and involvement in rewarding/distracting activities. All these strategies may help parents to restore the perception of control to the situation and to foster their self-efficacy when dealing with the demands imposed by the infant's DCA.

References

- Abramsky, L., Hall, S., Levitan, J., & Marteau, T. (2001). What parents are told after prenatal diagnosis of a sex chromosome abnormality: Interview and questionnaire study. *British Medical Journal*, *322*, 463-466. doi: 10.1136/bmj.322.7284.463

- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Casaccia, G., Zaccara, A., Giorlandino, C., & Bagolan, P. (2004). Antenatal diagnosis of diaphragmatic hernia: Parents' emotional and cognitive reactions. *Journal of Pediatric Surgery, 39*(2), 174-178. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2003.10.010
- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Zaccara, A., Casaccia, G., & Bagolan, P. (2003). A challenging intervention with maternal anxiety: Babies requiring surgical correction of a congenital anomaly after missed prenatal diagnosis. *Infant Mental Health Journal, 24*(6), 571-579. doi: 10.1002/imhj.10075
- Aite, L., Zaccara, A., Nahom, A., Trucchi, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Mothers' adaptation to antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies. *Early Human Development, 82*, 649-653. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2005.12.010
- Aite, L., Zaccara, A., Trucchi, A., Brizzi, C., Nahom, A., Iacobelli, B., . . . Bagolan, P. (2009). When uncertainty generates more anxiety than severity: The prenatal experience with cystic adenomatoid malformation of the lung. *Journal of Perinatal Medicine, 37*, 539-542. doi: 10.1515/JPM.2009.098
- Aite, L., Zaccara, A., Trucchi, A., Nahom, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Parents' informational needs at the birth of a baby with a surgically correctable anomaly. *Pediatric Surgery International, 22*, 267-270. doi: 10.1007/s00383-005-1631-2
- Beaumont, D. (2006). Exploring parental reactions to the diagnosis of cleft lip and palate. *Paediatric Nursing 18*(3), 14-18.
- Boss, P. (2002). *Family stress management: A contextual approach* (2nd ed.). Thousand Oaks, CA: SAGE.
- Chaplin, J. P., Schwitzer, R., & Perkoulidis, S. A. (2005). Experiences of prenatal diagnosis of spina bifida or hydrocephalus in parents who decide to continue with their pregnancy. *Journal of Genetic Counseling, 14*(2), 151-162. doi: 10.1007/s10897-005-0488-9
- Cook, W. & Kenny, D. (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
- Daneco, E. (1997). Parental beliefs on childhood disability: Insights on culture, child development and intervention. *International Journal of Disability, Development and Education, 44*(1), 41-52. doi: 10.1080/0156655970440104
- DeBackere, K., Hill, P. D., & Kavanaugh, K. L. (2008). The parental experience of pregnancy after perinatal loss. *Journal of Obstetric, Gynecologic, & Neonatal Nursing, 37*(525-537). doi: 10.1111/j.1552-6909.2008.00275.x
- Drotar, D., Baskiewicz, A., Irvin, N., Kennell, J., & Klaus, M. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: A hypothetical model. *Pediatrics, 56*(5), 710-717.
- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2012). Prevalence tables. Retrieved July 20, 2012, from <http://www.eurocat-network.eu/accessprevalencedata/prevalencetables>.

- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2009). *EUROCAT guide 1.3 and reference documents: Instructions for the registration and surveillance of congenital anomalies*. Newtonabbey: EUROCAT Central Registry.
- Fonseca, A., & Canavarro, M. C. (2010). Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congénita do bebé: Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde [Parental reactions to perinatal congenital anomaly diagnosis of the baby: Implications for the intervention of health professionals]. *Psicologia, Saúde & Doenças, 11*(2), 281-295.
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011a). Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 29*(4), 320-333. doi: 10.1080/02646838.2011.634398
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011b). *Poderão as reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de anomalia congénita no bebé ajudar os profissionais de saúde a sinalizar dificuldades emocionais futuras?* [May the parents' emotional reactions to the disclosure of the diagnosis of a congenital anomaly help health professionals to signalize future emotional difficulties?]. Poster presented at the II Congresso da Sociedade Portuguesa de Obstetrícia e Medicina Materno-Fetal, Coimbra, Portugal.
- Garwick, A. W., Patterson, J., Bennett, F. C., & Blum, R. W. (1995). Breaking the news: How families first learn about their child's chronic condition. *Archives of Pediatric and Adolescent Medicine, 149*(9), 991-997. doi: 10.1001/archpedi.1995.02170220057008
- Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge. (2011). *Registo Nacional de Anomalias Congénitas – Relatório de 2008-2010* [National Register of Congenital Anomalies – 2008-2010 Report]. Lisboa, Portugal: Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge.
- Kemp, J., Davenport, M., & Pernet, A. (1998). Antenatally diagnosed surgical anomalies: The psychological effect of parental antenatal counseling. *Journal of Pediatric Surgery, 33*(9), 1376-1379. doi: 10.1016/S0022-3468(98)90011-2
- Kerr, S., & McIntosh, J. (1998). Disclosure of disability: Exploring the perspective of parents. *Midwifery, 14*, 225-232. doi: 10.1016/S0266-6138(98)90094-8
- Lalor, J., & Begley, C. (2006). Fetal anomaly screening: What do women want to know? *Journal of Advanced Nursing, 55*(1), 11-19. doi: 10.1111/j.1365-2648.2006.03884.x
- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2008). A grounded theory study of information preference and coping styles following antenatal diagnosis of foetal abnormality. *Journal of Advanced Nursing, 64*(2), 185-194. doi: 10.1111/j.1365-2648.2008.04778.x
- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2009). Recasting hope: A process of adaptation following fetal anomaly. *Social Science & Medicine, 68*, 462-472. doi: 10.1016/j.socscimed.2008.09.069
- Lipinski, S., Lipinski, M., Biesecker, L., & Biesecker, B. (2006). Uncertainty and perceived personal control among parents of children with rare chromosome conditions: The role of genetic counseling. *American Journal of Medical Genetics Part C (Seminars in Medical Genetics), 142C*, 232-240. doi: 10.1002/ajmg.c
- Mander, R. (2005). *Loss and bereavement in childbearing*. Oxon: Routledge.

- Marshak, L. & Prezant, F. (2007). *Married with special-needs children: A couples' guide to keeping connected*. Bethesda: Woodbine House.
- McCubbin, M., & Patterson, J. (1983). The family stress process: The Double ABC-X Model of adjustment and adaptation. *Marriage and Family Review*, 6, 7-37. doi: 10.1300/J002v06n01_02
- Milunsky, A., & Milunsky, J. M. (2010). *Genetic disorders and the fetus: Diagnosis, prevention and treatment*. Oxford, UK: Willey-Blackwell.
- Mishel, M. (1988). Uncertainty in illness. *Journal of Nursing Scholarship*, 20(4), 225-232. Doi: 10.1111/j.1547-5069.1988.tb00082.x
- Mishel, M. (1990). Reconceptualization of the Uncertainty in Illness theory. *Journal of Nursing Scholarship*, 22(4), 256-262.
- Mitchell, L. (2004). Women's experiences of unexpected ultrasound findings. *Journal of Midwifery & Women's Health*, 49(3), 228-234. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Nusbaum, R., Grubs, R., Losee, J., Weidman, C., Ford, M., & Marazita, M. (2008). A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *Journal of Genetic Counseling*, 17, 336-350. doi: 10.1007/s10897-008-9152-5
- Petrucelli, N., Walker, M., & Schorry, E. (1998). Continuation of pregnancy following the diagnosis of a fetal sex chromosome abnormality. *Journal of Genetic Counseling*, 7(5), 410-415. doi: 10.1023/A:1022828715158
- Rolland, J. S. (1999). Parental illness and disability: A family systems framework. *Journal of Family Therapy*, 21, 242-266. doi: 10.1111/1467-6427.00118
- Schuth, W., Karck, U., Wilhelm, C., & Reisch, S. (1994). Parents' needs after ultrasound diagnosis of a fetal malformation: An empirical deficit analysis. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, 4, 124-129. doi: 10.1046/j.1469-0705.1994.04020124.x
- Seligman, M., & Darling, R. (2007). *Ordinary families, special children: A systems approach to childhood disability* (3rd ed.). New York: The Guilford Press.
- Silver, E. J., Westbrook, L. E., & Stein, R. E. K. (1998). Relationship of parental psychological distress to consequences of chronic health conditions in children. *Journal of Pediatric Psychology*, 23(1), 5-15. doi: 10.1093/jpepsy/23.1.5
- Sommerseth, E., & Sundby, J. (2010). Women's experiences when ultrasound examinations give unexpected findings in the second trimester. *Women and Birth*, 23, 111-116. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Statham, H., Solomou, W., & Chitty, L. (2000). Prenatal diagnosis of fetal abnormality: Psychological effects on women in low-risk pregnancies. *Baillière's Clinical Obstetrics and Gynaecology*, 14(4), 731-747. doi: 10.1053/beog.2000.0108

Estudo Empírico III

Parental psychological distress and quality of life after a pre- or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy babies

2012

Disability and Health Journal

Volume 5

Páginas: 67-74

doi: 10.1016/j.dhjo.2011.11.001

Parental psychological distress and quality of life after a pre- or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy babies

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

Background: Parental early adjustment to a pre- or postnatal diagnosis of congenital anomaly has been studied mainly within a pathological and deterministic perspective, giving us an inadequate view of the impact of the diagnosis.

Objectives: Adopting a comprehensive approach on parental adjustment, we aimed to characterise the impact of the diagnosis on psychological distress and quality of life, in the early post-diagnosis stage. The effects of gender and the timing of the diagnosis were also examined.

Methods: In this cross-sectional study, 42 couples with healthy babies and 42 couples whose babies were pre- or postnatally diagnosed with a congenital anomaly responded to the Brief Symptom Inventory-18 and to the World Health Organization Quality of Life-Bref instrument.

Results: In the early post-diagnosis stage, parents whose babies were diagnosed with a congenital anomaly presented higher levels of psychological distress than the parents of healthy babies ($F_{2,79} = 6.23, p = .003$), although they displayed similar levels of quality of life ($F_{4,78} = 0.62, p = .647$). Mothers reported more adjustment difficulties than fathers in both groups. Receiving the diagnosis in the prenatal period was associated with higher maternal psychological quality of life ($Z = -2.00, p = .045$).

Conclusion: The occurrence of a diagnosis of congenital anomaly during the transition to parenthood adds to an accumulation of stress-inducing events and manifests itself in psychopathological symptoms. Maintaining a positive evaluation of well-being may be understood as a parental resource to deal with the diagnosis. The importance of adopting a comprehensive perspective on parental adjustment is highlighted.

Key-words: parental adjustment; postnatal diagnosis of congenital anomaly; prenatal diagnosis of congenital anomaly; psychological distress; quality of life

Introduction

The disclosure of a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly (DCA) suddenly and unexpectedly disrupts parental expectations of a healthy baby (Lawoko & Soares, 2006). Parents must cope with the dual challenge of the transition to parenthood and of the pre- or postnatal DCA, with its associated medical, financial, social, and emotional demands (Howard, 2006; Mazer et al., 2008; Messias, Gilliss, Sparacino, Tong, & Foote, 1995). With most studies focusing on long-term familial consequences of a DCA, little is known about parental adjustment during the early post-diagnosis stage (Aite et al., 2003; Mazer et al., 2008), especially when we consider other dimensions of adjustment besides psychological distress, such as quality of life (QoL). This study aimed to characterise the maternal and paternal psychological distress and QoL in the early post-diagnosis stage after a pre- or postnatal DCA in comparison with a group of parents of healthy babies in the same developmental period.

Psychological distress

As a deterministic and pathological perspective on the consequences to the family of the birth of a disabled child prevailed for several decades (Ferguson, 2002), psychological distress has predominantly been used as the indicator of parental adjustment to their child's DCA. Parents of babies with a pre- or postnatally identified DCA presented higher levels of anxiety (Aite et al., 2003; Brisch et al., 2003; Ferguson, 2002; Kaasen et al., 2010; Kemp, Davenport, & Pernet, 1998) and depression (Kaasen et al., 2010; Leithner et al., 2004; Pinelli et al., 2008) after the diagnosis, in comparison both with parents of healthy babies in the same developmental period and with the general population.

Increased levels of psychological distress were found in parents of babies with a DCA, whether it was pre- or postnatally identified, and research showed that, immediately after the diagnosis, there were no differences in psychological distress as a function of the timing of diagnosis (pre- or postnatal; Brosig, Whitstone, Frommelt, Frisbee, & Leuthner, 2007). However, parents of babies with a prenatal diagnosis presented higher levels of psychological distress six weeks after the birth of the baby (Skari et al., 2006) and six months after the diagnosis (Brosig, et al., 2007) when compared with parents with a postnatally identified DCA. Brosig et al. (2007) suggested that prenatal diagnosis may constitute a long-lasting psychological stressor for parents given the increased latency period between diagnosis and treatment availability. Another study showed a different pattern according to gender (Hoehn et al., 2004). During the period of the newborns' hospitalisation due to corrective surgery for congenital heart disease, fathers whose babies were prenatally diagnosed reported less anxiety when compared to fathers whose babies

were diagnosed in the postnatal period, while both groups of mothers reported similar levels of anxiety.

Additionally, while most studies reported that mothers presented higher levels of psychological distress than fathers after a pre- or postnatal DCA (e.g., Doherty et al., 2009; Franck, Mcquillan, Wray, Grocott, & Goldman, 2010), which was also found during the transition to parenthood in low-risk pregnancies (Perren, Wyl, Bürgin, Simoni, & Klitzing, 2005; Teixeira, Figueiredo, Conde, Pacheco, & Costa, 2009), one study found no gender differences (Brosig et al., 2007). Moreover, other studies showed that existing gender differences with respect to psychological distress immediately after the DCA tended to disappear in subsequent evaluations at six weeks (Skari et al., 2006) and three months after the birth (Pinelli et al., 2008), suggesting some similarity between maternal and paternal experiences. Despite the contribution of these results to understanding parents' experience after a DCA and their specificities as a function of timing of diagnosis and gender, some authors have underlined the need for a broader perspective of parents' adjustment to their child's diagnosis covering other important dimensions of well-being, such as QoL (Lawoko, 2007). This comprehensive approach to parental adjustment allows for an understanding of the broader impact of a DCA and, consequently, a clearer definition of health professionals' intervention goals and strategies.

Quality of life

Quality of life, as defined by the World Health Organization [WHO] (The WHOQOL Group, 1994), encompasses an individual's perception of their own physical, psychological, social, and environmental well-being, taking into account their culture and value systems, as well as their goals and expectations. QoL has been increasingly used as a health status indicator in medical and public health research (WHO, 1997). The measure has informative value when assessing the adjustment of parents whose children have a DCA (The WHOQOL Group, 1994)

Studies focusing on parental QoL in the post-diagnosis stage are scarce. One exception is the study by Mazer et al. (2008), which found that six weeks after birth, both mothers and fathers of babies with a DCA presented a lower QoL score on the mental component scale of the Medical Outcomes Study Short Form-36 when compared with the normative group. Mothers displayed a lower QoL score than fathers, especially in the physical component scale (Mazer et al., 2008). However, in this study, the normative values of the general population were used as a reference, so the possibility remains that these differences were due to the experiences of pregnancy and parenting (a decline in QoL for mothers and fathers was found to be common, even in an uneventful pregnancy; Condon, Boyce, & Corkindale, 2004; Jomeen, 2004). Moreover, to our knowledge, no studies have assessed QoL after a prenatal DCA or the QoL variability as a function of the timing of diagnosis.

Additionally, other studies have shown that parents of children with congenital anomalies or disabilities reported a lower QoL, when compared with normative data, parents of healthy children, or parents of children with minor illnesses (e.g., respiratory tract infection, fever; Arafa, Zaher, El-Dowaty, & Moneeb, 2008; Eker & Tüzün, 2004; Landolt, Buechel, & Latal, 2011; Leung & Li-Tsang, 2003). However, these studies comprised parents of children in different developmental phases, with different demands, and with a wide range of ages (e.g., a study included children from one month to 16 years, Arafa et al., 2008). Therefore, the results found cannot be generalised to the early post-diagnosis stage after a pre- or postnatal DCA. Although not specifically assessing QoL, a recent study found no differences in life satisfaction between mothers of babies with a prenatal diagnosis of congenital heart disease and mothers of healthy babies, either during pregnancy (30th gestation week) or at six months postpartum (Dale et al., 2012). According to the authors, satisfaction with life may be understood as a more comprehensive evaluation of the individual's life, including aspects other than the provision of care for a child with a DCA. Conversely, it was hypothesised that, given the diagnosis, mothers may have hope for the future and use coping strategies to remain in a positive state, suggesting that life satisfaction may be conceptualised as a personal resource in the face of adversity.

The scarcity of studies regarding QoL and the inconsistent results of the existing ones demonstrated that the impact of a pre- or postnatal DCA in other dimensions of parental well-being besides psychological distress (namely QoL) is yet to be determined, which may contribute to a deterministic and pathological perspective that, in turn, influences the practice of health professionals and researchers.

Aims and Hypotheses

In this study, we adopted a comprehensive approach to parental adjustment after a DCA. In addition to considering both maternal and paternal experiences, parental adjustment was operationalized both in terms of psychological distress and QoL. We aimed 1) to examine parental adjustment after a pre- or postnatal DCA, in comparison with a group of parents of healthy babies (clinical vs. comparison group), 2) to investigate gender differences on parental adjustment in both groups, and 3) to examine the effect of the timing of diagnosis (pre- vs. postnatal) on adjustment of parents whose babies were diagnosed with a DCA.

Based on the literature review, our first hypothesis was that parents of babies with a pre- or postnatal DCA would present higher levels of psychological distress than the comparison group. Our second hypothesis was that women would report higher levels of psychological distress and lower levels of QoL than men, independently of the group. Given the absence of specific research on this topic, no hypotheses were put forth regarding the impact of a DCA in parental QoL, the interaction effects of gender and group, and the effects of the timing of diagnosis (pre- vs. postnatal) in parental adjustment in the clinical group.

Method

Procedure

This study was approved by the Ethics Committees of two Portuguese urban referral hospitals (Hospitais da Universidade de Coimbra and Centro Hospitalar de Coimbra). Inclusion criteria for the clinical group (parents of babies with a DCA) were: having a baby with a pre- or postnatally identified DCA, without the occurrence of perinatal death or termination of pregnancy for fetal anomaly. A group of parents of healthy babies (babies without pre- or postnatally identified DCAs or other medical problems) similar to the parents of the clinical group regarding socio-demographic and clinical characteristics was constituted for comparison purposes (comparison group). For both groups, being 18 years or older and having a level of literacy (education level $\geq 6^{\text{th}}$ grade) that allowed the comprehension of the assessment protocol was required.

The sample collection occurred between September 2009 and April 2011. For the clinical group, approximately one month after the disclosure of a DCA, all parents (consecutive sampling) were informed by the medical team about this investigation at the end of a medical appointment, and they were asked for their authorisation to be contacted by the researchers. Participants in the comparison group were approached by the researchers prior to their medical appointment (either during pregnancy or one month after the birth in a similar proportion to the assessment timing, pre- or postnatal, in the clinical group; consecutive sampling). We presented the research goals to all contacted parents and an informed consent was signed by those who decided to participate. Participants were given the questionnaires, and were told to return them to the researchers at the following medical appointment.

A total of 169 couples (69 from the clinical group) were contacted, of which 34 (18 from the clinical group) refused to participate or did not return the questionnaires (participation rate = 79.9%). We excluded eight couples in the clinical group because the questionnaires were filled out only by the women. In the comparison group, we selected 42 couples with socio-demographic and clinical characteristics similar to the clinical group (with the exception of maternal age - as this is a risk factor for congenital anomalies, we believe that it is a distinctive feature of the clinical group, that should be highlighted).

Measures

Psychological distress was evaluated with the Portuguese version of the Brief Symptom Inventory – BSI-18 (Derogatis, 2000), a 5-point Likert scale (from 0 = *Not at all* to 4 = *Extremely*),

which is comprised of three dimensions (Anxiety, Depression, and Somatization). Higher values indicate the presence of more intense psychopathological symptoms. According to the study goals, only the Anxiety and Depression dimensions were used. In our sample, Cronbach's alphas for Anxiety were .89 (clinical group) and .79 (comparison group) and for Depression were .87 (clinical group) and .84 (comparison group).

Quality of life was assessed with the Portuguese version of the World Health Organization Quality of Life brief instrument - WHOQOL-BREF (Vaz-Serra et al., 2006). By comparison to the original version of the instrument (WHOQOL-100), the brief version also revealed adequacy in assessing the construct of QoL (Skevington, Lotfy, & O'Connell, 2004), with the advantage of being easier and faster to fill by the participants. The WHOQOL-BREF questionnaire consists of 26 items (answered on a 5-point Likert scale) organised into a facet of Overall QoL (general perception of QoL and health) and four specific domains, each one assessing the following dimensions: Physical (pain and discomfort, energy and fatigue, sleep and rest, dependence on medication, mobility, activities of daily living, and working capacity; in our sample, Cronbach's alphas = .74 for the clinical group and .83 for the comparison group), Psychological (positive and negative feelings, self-esteem, thinking learning, memory and concentration, body image, and spirituality, religion and personal beliefs; Cronbach's alphas = .79 both for clinical and comparison groups), Social Relationships (personal relations, sexual relations, social support; Cronbach's alphas = .67 for the clinical group and .75 for the comparison group), and Environment (financial resources, information and skills, recreation and leisure, home environment, access to health and social care, physical safety and security, physical environment and transport; Cronbach's alphas = .77 for the clinical group and .81 for the comparison group). Higher scores indicate better QoL. Given its low Cronbach's alpha ($< .60$) in our sample, the Overall facet of QoL was not used.

We also collected socio-demographic (gender, age, marital status, educational level, and professional status) and clinical information (obstetric history – parity, pregnancy loss, infertility, and other complications; current pregnancy data – gestational age and pregnancy complications; the baby's data – age and health problems; and DCA - type of congenital anomaly, timing of diagnosis – pre- vs. postnatal, hospitalization in the NICU, need of surgery).

Data Analyses

Analyses were conducted with IBM SPSS, version 19.0. We performed the data analyses using the couple as a unit to take into account the non-independence of the couple's observations. The database was restructured to consider each couple as the subject of the analysis and each partner's score as a different variable.

We used descriptive statistics for the demographic and clinical characterisation of the sample and to describe parental adjustment (psychological distress and QoL). Chi-squared tests and *t*-tests were used to compare groups based on socio-demographic characteristics. The effects

of gender and group in parental adjustment (psychological distress and QoL) were assessed with repeated-measures MANOVAs with group (clinical, comparison) as the between-subjects factor and gender (female, male) as the within-subjects factor. ANOVAs were used when the multivariate effect was significant. We examined the association between maternal and paternal adjustment with Pearson's correlations. The effect of the timing of diagnosis in parental adjustment was evaluated with non-parametric tests (Mann-Whitney U) because necessary assumptions for parametric tests were not met. Because of the non-independence of the couple's observations, we presented the results separately for mothers and fathers.

Post hoc power calculations made for all parametric statistical analyses performed with a significance level of .05 and power $\geq .80$ indicated that medium to large effects could be detected (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007). As a result, significance was defined as $p < .05$ but marginally significant results ($p \leq .10$) were also reported. Effect-size measures are presented for all the analyses (small: $\eta^2 \geq .01$, $r \geq .1$, $d \geq .20$, medium: $\eta^2 \geq .06$, $r \geq .3$, $d \geq .50$, large: $\eta^2 \geq .14$, $r \geq .5$, $d \geq .80$; Cohen, 1992).

Results

Socio-demographic and clinical characteristics of the sample

The final sample was comprised of 84 couples (42 from the clinical group and 42 from the comparison group). Socio-demographic and clinical data are presented in Table 1. We found no significant differences between groups with regard to socio-demographic and clinical characteristics, except for maternal age ($t_{82} = 2.22$, $p = .029$; mothers of the clinical group were significantly older than the mothers of the comparison group). Regarding the characteristics of the DCA, the majority of diagnoses occurred during pregnancy, but none of the pregnancies were terminated. Only in 10.3% ($n = 4$) of cases there was a diagnosis of multiple congenital anomalies.

Impact of a DCA in parental adjustment: clinical vs. comparison group

Table 2 presents descriptive statistics regarding parental adjustment according to group and gender, and also univariate analyses regarding group and gender effects in parental adjustment. Associations between maternal and paternal adjustment in both groups are also presented.

Regarding psychological distress, we found a significant multivariate group effect (Pillai's Trace = .136, $F_{2,79} = 6.23$, $p = .003$, $\eta^2 = .136$): the univariate analyses revealed significant differences in anxiety and in depression, with parents of the clinical group presenting higher

scores. Conversely, we found no significant multivariate group effect on QoL (Pillai's Trace = .031, $F_{4,78} = 0.62$, $p = .647$, $\eta^2 = .031$; see Table 2).

Table 1 | Socio-demographic and clinical characteristics of the sample

		Clinical group (<i>n</i> = 42 couples)		Comparison group (<i>n</i> = 42 couples)	
		Mothers	Fathers	Mothers	Fathers
Demographics					
		<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>
<i>Age</i>		31.2 (4.5)	32.0 (4.4)	29.2 (2.7)	31.5 (3.9)
<i>Education years</i>		14.9 (3.2)	12.6 (3.4)	14.0 (2.7)	12.0 (4.0)
		<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>
<i>Prof. status</i>	Employed	38 (90.5)	40 (95.2)	32 (76.2)	37 (88.1)
	Unemployed	4 (9.5)	2 (4.8)	10 (23.8)	5 (11.9)
Clinical characteristics					
		<i>n (%)</i>		<i>n (%)</i>	
<i>Parity</i>	Primiparous	28 (66.7)		28 (66.7)	
	Multiparous	14 (33.3)		14 (33.3)	
<i>Complications in current pregnancy</i>		9 (22)		7 (16.7)	
<i>Obstetric history</i>					
	Pregnancy loss	6 (14.3)		6 (14.3)	
	Infertility problems	5 (11.9)		3 (7.1)	
<i>Timing of DCA</i>					
	Prenatal diagnosis	31 (73.8)			
		[Gestational age: <i>M (SD)</i> = 23.7 (5.6) weeks]			
	Postnatal diagnosis	11 (26.2)			
<i>Type of DCA</i>					
	Urinary system anomalies	13 (31.0)			
	Congenital heart disease	10 (23.8)			
	Visible anomalies	9 (10.1)			
	Nervous system anomalies	5 (11.9)			
	Digestive system anomalies	5 (11.9)			
<i>Hospitalization in the NICU</i>		8 (22.9)			
<i>Surgery in the first month after birth</i>		6 (14.3)			
Assessment time					
		<i>M (SD)</i>		<i>M (SD)</i>	
<i>Gestational age at prenatal assessment (weeks)</i>		27.9 (6.7)		25.9 (7.5)	
<i>Newborn's age at postnatal assessment (months)</i>		1.7 (0.7)		1.6 (0.7)	

Gender differences

Our results showed a multivariate effect of gender in psychological distress (Pillai's Trace = .159, $F_{2,79} = 7.45$, $p = .001$, $\eta^2 = .159$): women presented significantly higher levels of anxiety (Mothers: $M = 5.94$, $SD = 4.41$ vs. Fathers: $M = 4.57$, $SD = 4.45$) and depression (Mothers: $M = 4.72$, $SD = 4.40$ vs. Fathers: $M = 3.10$, $SD = 3.74$). However, we found no interaction effects between gender and group in psychological distress (Pillai's Trace = .002, $F_{2,79} = 0.074$, $p = .929$, $\eta^2 = .002$).

Similarly, our results showed gender differences in QoL (Pillai's Trace = .372, $F_{4,78} = 11.57$, $p < .001$, $\eta^2 = .372$). The univariate analyses indicated that differences occurred in the physical (Mothers: $M = 69.04$, $SD = 13.72$ vs. Fathers: $M = 79.13$, $SD = 11.66$) and psychological domains (Mothers: $M = 73.48$, $SD = 12.87$ vs. Fathers: $M = 79.80$, $SD = 12.76$), with mothers presenting lower QoL than fathers. Also we found a significant interaction effect between gender and group in QoL (Pillai's Trace = .118, $F_{4,78} = 2.62$, $p = .041$, $\eta^2 = .118$), specifically in the physical ($F = 5.15$, $p = .026$) and environmental ($F = 7.34$, $p = .008$) domains. The results of post-hoc analyses revealed that, with regard to the physical domain, gender differences were observed in both groups (clinical group: $t_{40} = -2.52$, $p = .016$, $d = .394$; comparison group: $t_{40} = -5.60$, $p < .001$, $d = .884$), while regarding the environmental domain, gender differences only occurred in the clinical group (clinical group: $t_{40} = 2.94$, $p = .005$, $d = .447$; comparison group: $t_{40} = -1.07$, $p = .292$, $d = .165$).

In the clinical group, our results showed significant medium to large associations between maternal and paternal adjustment, with the exception of physical QoL. However, in the comparison group, significant associations between maternal and paternal scores were only found in anxiety, and in social relationships and environmental QoL (see table 2).

Timing of diagnosis (pre vs. postnatal)

We found no differences in psychological distress as a function of the timing of diagnosis for either gender. Mothers whose babies were diagnosed in the prenatal period ($M = 75.82$, $SD = 11.75$) presented higher psychological QoL than mothers whose babies were diagnosed after birth ($M = 66.67$, $SD = 12.91$; $Z = -2.00$, $p = .045$, $r = .031$), but no differences were found in the other QoL domains. The timing of the diagnosis did not have a significant effect on paternal QoL.

Table 2 | Maternal and paternal psychological distress and QoL: Descriptive statistics, correlations, group and gender effects

	Clinical group (n = 42 couples)				Comparison group (n = 42 couples)				Group effects (clinical vs. comparison)		Gender effects (mothers vs. fathers)	
	Mothers <i>M (SD)</i>	Fathers <i>M (SD)</i>	<i>r</i>	Total <i>M (SD)</i>	Mothers <i>M (SD)</i>	Fathers <i>M (SD)</i>	<i>r</i>	Total <i>M (SD)</i>	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2
<i>Psychological distress (BSI-18)</i>												
Anxiety	7.1 (5.2)	5.5 (5.3)	.63 ^{***}	6.3 (5.3)	4.9 (3.2)	3.6 (3.2)	.33 [*]	4.2 (3.2)	5.85 [*]	.07	7.41 ^{**}	.09
Depression	6.1 (5.3)	4.3 (4.5)	.50 ^{**}	5.2 (5.0)	3.3 (2.6)	1.9 (2.2)	.09	2.6 (2.5)	12.58 ^{**}	.14	14.74 ^{***}	.16
<i>Quality of life (WHOQOL-Bref)</i>												
Physical	70.9 (11.9)	77.1 (12.2)	.17	74.0 (12.3)	67.1 (15.2)	81.1 (10.9)	.27	74.1 (14.9)	0.02	.00	33.28 ^{***}	.29
Psychological	73.4 (12.6)	77.2 (14.3)	.42 ^{**}	75.3 (13.6)	73.6 (13.3)	82.3 (10.6)	.09	77.9 (12.7)	1.43	.02	13.81 ^{***}	.15
Soc. Relat.	75.6 (12.4)	74.2 (14.9)	.52 ^{**}	74.9 (13.6)	77.5 (17.8)	77.7 (13.8)	.52 ^{***}	77.8 (15.7)	0.89	.01	0.14	.00
Environment.	70.1 (11.1)	65.5 (11.2)	.59 ^{***}	67.8 (11.3)	69.4 (11.3)	71.4 (11.8)	.45 ^{**}	70.4 (11.5)	1.42	.17	1.18	.01

^{*}*p* < .05. ^{**}*p* < .01. ^{***}*p* < .001.

Discussion

The main finding of this study is that, in the early post-diagnosis stage, parents whose babies were diagnosed with a congenital anomaly presented higher levels of psychological distress than parents of healthy babies, while their levels of QoL were similar. The occurrence of the DCA appears to have, in the early post-diagnosis stage, a greater impact on particularly emotional and overt manifestations (anxiety and depression) rather than on dimensions that reflect a global evaluation of individual well-being.

Impact of a DCA in parental adjustment

Results concerning psychological distress were consistent with findings of other studies (e.g., Kaasen et al., 2010; Kemp et al., 1998), confirming our first hypothesis. These results seem to support the idea that the occurrence of a DCA is a stress-inducing event for the family, beyond the transition to parenthood itself, which is also a distressing experience (Nomaguchi & Milkie, 2003; Teixeira et al., 2009). Parents of babies with a DCA have to deal simultaneously with the stressors associated with the diagnosis and stressors associated with the transition to parenthood, which may result in a greater challenge to the parental adaptation process and is likely to manifest itself in higher levels of psychological distress. These results are also consistent with stress and family crisis theories (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983), which argue that the accumulation of stress-inducing events is a potential factor for crisis in the family system. Additionally, given the unexpectedness (Lalor, Begley, & Galavan, 2009) and significance of the DCA (the loss of a healthy baby; Jones, Statham, & Solomou, 2005) to parents, anxious and depressive manifestations can be seen as an expected and normative expression of the parental experience in the early post-diagnosis stage.

We found no differences in parental QoL as a function of group. These results contrast with the lower QoL found in parents of six-week-old babies with a DCA (Mazer et al., 2008) and with findings regarding QoL in parents of children with congenital anomalies in different developmental phases (Landolt et al., 2011; Lawoko & Soares, 2003). Differences found in these studies may be due to the use of normative data, rather than parents of healthy babies, as comparison groups, and/or to the use of samples including children in different developmental phases. On the other hand, our results were similar to the ones found by Dale et al. (2012) regarding life satisfaction. Parent's evaluation of their QoL reflects their perception of well-being in several dimensions (e.g., physical, psychological, and social) taking into account the larger context (Lawoko & Soares, 2003); therefore, assessing the individual perception of QoL involves assessing a broader dimension of individual adjustment, which is not restricted to psychological distress (Lawoko, 2007; WHO, 1997). A possible explanation for our results is that, at least in the

early post-diagnosis stage, the occurrence of a DCA may not have a significant impact on QoL, understood as a general evaluation of several life domains (e.g., financial, social), although it has a significant impact on more specific dimensions of parental adjustment, that is, emotional adjustment. Additionally, as pointed out by Dale et al. (2012), these results may reflect an active effort of parents to maintain a positive assessment of their life and well-being in the early post-diagnosis stage, which may act as a resource for dealing with the diagnosis. These hypotheses should be addressed in future studies.

Gender differences

In our study, mothers experienced more adjustment difficulties than fathers in both groups, confirming our second hypothesis. Gender differences may be explained by the larger set of changes experienced by mothers during the transition to parenthood (e.g., physical, emotional changes), along with their main role as caregivers (Nomaguchi & Milkie, 2003). There were also some group specificities, namely the existence of significant differences between mothers and fathers in environmental QoL, only in the clinical group: fathers perceived lower QoL than mothers. These findings may be related to the fact that fathers were more focused on dealing with the financial and other practical demands associated with the diagnosis, when compared to mothers (Hoehn et al., 2004). Additionally, after a DCA, mothers may tend to express their distress more, because they have to deal with specific issues which they may perceive as a loss of their parental role (e.g., greater monitoring of the pregnancy, which could prevent them from making decisions about childbirth; the baby's first perinatal care provided in a NICU, when mothers were usually the primary caregiver after the baby's birth; Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999; Jones et al., 2005), while fathers tend to contain their emotions, by assuming a supportive role of their partners (Locock & Alexander, 2006).

Despite the differences found, our results also highlighted a shared experience within the couple (as expressed by the positive associations between maternal and paternal adjustment) in the face of stress-inducing events, such as the transition to parenthood and the occurrence of a pre- or postnatal DCA. Further studies should examine the role that (dis)similar experiences may have on the individual adjustment of each partner.

Timing of diagnosis

Our results showed no differences on psychological distress as a function of the timing of the diagnosis. These results were similar to those of Brosig et al. (2007) and suggest that, although a prenatal diagnosis was found to constitute a risk factor for subsequent maladjustment (Skari et al., 2006), this is not the case in the early post-diagnosis stage.

To our knowledge, this was the first study to assess the relationship between timing of the diagnosis and maternal and paternal QoL, and our results were innovative, despite their exploratory nature. Psychological QoL was higher in mothers whose babies were diagnosed in the prenatal period. These women, contrary to the mothers of babies with postnatal diagnoses, are often confronted with uncertainty and a waiting period until the birth of the baby, when more information about the prognosis and treatment options is available (Statham, Solomou, & Chitty, 2000). On the one hand, it is possible that these mothers seek to retain a positive state of mind, as a resource to deal with this waiting and uncertainty period (Dale et al., 2012). On the other hand, a possible interpretation is that these results may be related with difficulty accepting the reality of the diagnosis, i.e., the expectation that the diagnosis will not be confirmed after the birth of the baby (Sommerseth & Sundby, 2010). However, we consider that this interpretation is unlikely, given the absence of differences found in psychological distress, which underline the impact of the DCA. The absence of differences in paternal QoL may be due to the fact that, regardless of the timing of diagnosis, fathers tend to focus on dealing with the practical requirements – rather than with the emotional issues – associated with both the diagnosis and the transition to parenthood (Hoehn et al., 2004) and on trying to assume a protective role of their partners (Locock & Alexander, 2006). Future research is needed to clarify the effect of the timing of the diagnosis on parental QoL.

Strengths and limitations of the study

The main contribution of this study was the adoption of a comprehensive approach to parental adjustment, including not only psychological distress but also other dimensions of well-being, namely physical and psychological QoL. This approach allowed us to draw a more complete profile of the initial impact of the DCA in parental adjustment, highlighting the importance of adopting, in research and clinical practice, a non-deterministic and non-pathological perspective, and underscoring the relevance of QoL as an indicator of adjustment with informative value in health contexts. Additionally, methodological options regarding sampling (namely, the inclusion of a comparison group, with parents of both groups being in the same phase of the life cycle) and assessment time (all parents of the clinical group were evaluated one month after the DCA), made it possible to assess the specific impact of the diagnosis on QoL, something that had not been done previously. The use of couples, rather than just mothers, was another strength of our study, because it took into account the experience of both members of the couple, and provided insight into couple's (di)similarities on adjustment to a pre- or postnatal DCA, which is an individual, but also a familiar experience.

However, there are also some limitations to the study. First, the power analysis (*a posteriori*) showed that small effects could not be detected given the sample size (Faul et al., 2007). Another limitation concerns the inclusion of different types of congenital anomalies (with

different prognoses and treatment options) in the sample. Although we believe it is important to consider the specific impact of different congenital anomalies (e.g., congenital heart disease), we opted for a non-categorical approach, which advocates more similarities than differences in the parental psychosocial implications of chronic health conditions (Silver, Westbrook, & Stein, 1998). Therefore, we find it is essential to understand the shared parental experience of receiving a pre- or postnatal DCA because early healthcare normally takes place in maternity departments, where professionals (obstetricians, neonatologists, midwives) encounter different types of DCA.

Conclusions and practical implications

Despite our detachment from the deterministic perspective, health professionals must recognise that the occurrence of a DCA during the transition to parenthood adds to an accumulation of stress-inducing events, which may result in an increased risk of developing psychopathological symptoms in the early post-diagnosis stage, although these symptoms may be understood as the result of a normative process of individual adjustment to the stress-inducing events (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983). Specifically, we highlight the essential role of a comprehensive assessment of parental adjustment, in order to characterise the parents' response to a DCA and to target for specialised counselling those who score worse on indices of adjustment.

In addition to more specialised interventions, parents of babies with a DCA can benefit from brief counselling, addressing some of the parental difficulties in adapting to both the transition to parenthood and the occurrence of a DCA, using intervention strategies such as psycho-education (about the physical, psychological and social changes during the transition to parenthood and the main challenges of dealing with the diagnosis), decision-making and problem-solving training, and emotional expression strategies (giving parents the opportunity to express emotions and perceptions about the DCA). Moreover, as the dissimilarity of intra-couple adjustment to stress-inducing events may itself be a source of stress (Marshak & Prezant, 2007), this issue should also be addressed in the context of brief counselling or more specialised interventions.

Finally, although they were exploratory, the QoL results suggest the possibility that a positive evaluation of well-being may be a resource in times of adversity; therefore, dimensions of poorer well-being should be identified for each individual and fostered in health care interventions (e.g., in the physical domain, the introduction of sleep hygiene strategies; in the social relationships domain, the activation of social support networks).

References

- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Zaccara, A., Casaccia, G., & Bagolan, P. (2003). A challenging intervention with maternal anxiety: Babies requiring surgical correction of a congenital anomaly after missed prenatal diagnosis. *Infant Mental Health Journal, 24*(6), 571-579. doi: 10.1002/imhj.10075
- Arafa, M., Zaher, S., El-Dowaty, A., & Moneeb, D. (2008). Quality of life among parents of children with heart disease. *Health and Quality of Life Outcomes, 6*, 91. doi: 10.1186/1477-7525-6-91
- Boss, P. (2002). *Family stress management: A contextual approach* (2nd ed.). London: SAGE.
- Brisch, K. H., Munz, D., Bemmerer-Mayer, K., Terinde, R., Kreienberg, R., & Kächele, H. (2003). Coping styles of pregnant women after prenatal ultrasound screening for fetal malformation. *Journal of Psychosomatic Research, 55*, 91-97. doi: 10.1016/S0022-3999(02)00572-X
- Brosig, C. L., Whitstone, B. N., Frommelt, M. A., Frisbee, S. J., & Leuthner, S. R. (2007). Psychological distress in parents of children with severe congenital heart disease: The impact of prenatal versus postnatal diagnosis. *Journal of Perinatology, 27*, 687-692. doi: 10.1038/sj.jp.7211807
- Cohen, J. (1992). A power prime. *Psychological Bulletin, 112*(1), 155-159. doi:10.1037/0033-2909.112.1.155
- Condon, J., Boyce, P., & Corkindale, C. (2004). The first-time fathers study: A prospective study of the mental health and wellbeing of men during the transition to parenthood. *Australian and New Zealand Journal of Psychiatry, 38*, 56-64. doi: 10.1111/j.1440-1614.2004.01298.x
- Dale, M., Solberg, O., Holmstrom, H., Landolt, M., Eskedal, L., & Vollrath, M. (2012). Mothers of infants with congenital heart defects: Well-being from pregnancy through the child's first six months. *Quality of life research, 21*, 115-122. doi: 10.1007/s11136-011-9920-9
- Derogatis, L. R. (2000). *The Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18): Administration, scoring and procedures manual*. Minneapolis, MN: National Computer Systems.
- Doherty, N., McCusker, C., Molloy, B., Mulholland, C., Rooney, N., Craig, B., . . . Casey, F. (2009). Predictors of psychological functioning in mothers and fathers of infants born with severe congenital heart disease. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 27*(4), 390-400. doi: 10.1080/02646830903190920
- Eker, L., & Tüzün, E. H. (2004). An evaluation of quality of life of mothers of children with cerebral palsy. *Disability and rehabilitation 26*(23), 1354-1359. doi: 10.1080/09638280400000187
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A. G., & Buchner, A. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods, 39*, 175-191.

- Ferguson, P. (2002). A place in the family: An historical interpretation of research on parental reactions to having a child with disability. *The Journal of Special Education, 36*(3), 124-130.
- Franck, L. S., Mcquillan, A., Wray, J., Grocott, M., & Goldman, A. (2010). Parent stress levels during children's hospital recovery after congenital heart surgery. *Pediatric Cardiology, 31*, 961-968. doi: 10.1007/s00246-010-9726-5
- Hoehn, K., Wernovsky, G., Rychick, J., Tian, Z., Donaghue, D., Alderfer, M., . . . Kazak, A. (2004). Parental decision-making in congenital heart disease. *Cardiology in the Young, 14*, 309-314. doi: 10.1017/S1047951104003099
- Howard, E. (2006). Family-centered care in the context of fetal abnormality. *Journal of Perinatal & Neonatal Nursing, 20*(3), 237-242.
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology, 24*(6), 515-520. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Jomeen, J. (2004). The importance of assessing psychological status during pregnancy, childbirth and the postnatal period as a multidimensional construct: A literature review. *Clinical Effectiveness in Nursing, 8*, 143-155. doi: 10.1016/j.cein.2005.02.001
- Jones, S., Statham, H., & Solomou, W. (2005). When expectant mothers know their baby has a fetal abnormality: Exploring a crisis of motherhood through qualitative data-mining. *Journal of Social Work Research and Evaluation, 62*(2), 195-206.
- Kaasen, A., Helbig, A., Malt, U., Naes, T., Skari, H., & Haugen, G. (2010). Acute maternal social dysfunction, health perception and psychological distress after ultrasonographic detection of a fetal structural anomaly. *British Journal of Obstetrics and Gynecology, 117*, 1127-1138. doi: 10.1111/j.1471-0528.2010.02622.x
- Kemp, J., Davenport, M., & Pernet, A. (1998). Antenatally diagnosed surgical anomalies: The psychological effect of parental antenatal counseling. *Journal of Pediatric Surgery, 33*(9), 1376-1379. doi: 10.1016/S0022-3468(98)90011-2
- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2009). Recasting hope: A process of adaptation following fetal anomaly. *Social Science & Medicine, 68*, 462-472. doi: 10.1016/j.socscimed.2008.09.069
- Landolt, M., Buechel, E., & Latal, B. (2011). Predictors of parental quality of life after child open heart surgery: A 6-month prospective study. *The Journal of Pediatrics, 158*(1), 37-43. doi: 10.1016/j.jpeds.2010.06.037
- Lawoko, S. (2007). Factors influencing satisfaction and well-being among parents of congenital heart disease children: Development of a conceptual model based on the literature review. *Scandinavian Journal of Caring Sciences, 21*, 106-117. doi: 10.1111/j.1471-6712.2007.00444.x
- Lawoko, S., & Soares, J. (2003). Quality of life among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Quality of life research, 12*(6), 655-666. doi: 10.1023/A.1025114331419

- Lawoko, S., & Soares, J. (2006). Psychosocial morbidity among parents of children with congenital heart disease: A prospective longitudinal study. *Heart & Lung, 35*(5), 301-314. doi: 10.1016/j.hrtlng.2006.01.004
- Leithner, K., Maar, A., Fischer-Kern, M., Hilger, E., Löffler-Stastka, H., & Ponocny-Seliger, E. (2004). Affective state of women following a prenatal diagnosis: Predictors of a negative psychological outcome. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology, 23*, 240-246. doi: 10.1002/uog.978
- Leung, C., & Li-Tsang, C. (2003). Quality of life of parents who have children with disabilities. *Hong Kong Journal of Occupational Therapy, 13*, 19-24. doi: 10.1016/S1569-1861(09)70019-1
- Locock, L., & Alexander, J. (2006). Just a bystander? Men's place in the process of fetal screening and diagnosis. *Social Science & Medicine, 62*, 1349-1359. doi: 10.1016/j.socscimed.2005.08.011
- Marshak, L. E., & Prezant, F. (2007). *Married with special-needs children: A couples' guide to keeping connected*. Bethesda: Woodbine House.
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M. v., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes, 6*(102), 102. doi: 10.1186/1477-7525-6-102
- McCubbin, M., & Patterson, J. (1983). The family stress process: The Double ABC-X Model of adjustment and adaptation. *Marriage and Family Review, 6*, 7-37. doi: 10.1300/J002v06n01_02
- Messias, D., Gilliss, C., Sparacino, P., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine, 13*(3/4), 367-377. doi: 10.1037/h0089280
- Nomaguchi, K., & Milkie, M. (2003). Costs and rewards of children: The effects of becoming a parent on adults' lives. *Journal of Marriage and Family, 65*(2), 356-374. doi: 10.1111/j.1741.3737.2003.00356.x
- Perren, S., Wyl, A., Bürgin, D., Simoni, H., & Klitzing, K. (2005). Depressive symptoms and psychological stress across the transition to parenthood: Associations with parental psychopathology and child difficulty. *Journal of Psychosomatic Obstetrics & Gynecology, 26*(3), 173-183. doi: 10.1080/01674820400028407
- Pinelli, J., Saigal, S., Wu, Y. W., Cunningham, C., DiCenso, A., Steele, S., . . . Turner, S. (2008). Patterns of change in family functioning, resources, coping and parental depression in mothers and fathers of sick newborns over the first year of life. *Journal of Neonatal Nursing, 14*, 156-165. doi: 10.1016/j.jnn.2008.03.015
- Silver, E. J., Westbrook, L. E., & Stein, R. E. K. (1998). Relationship of parental psychological distress to consequences of chronic health conditions in children. *Journal of Pediatric Psychology, 23*(1), 5-15. doi: 10.1093/jpepsy/23.1.5
- Skari, H., Malt, U., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, M., . . . Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A

- prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis*, 26, 1001-1009. doi: 10.1002/pd.1542
- Skevington, S., Lotfy, M., & O'Connell, K. (2004). The World Health Organization's WHOQOL-Bref quality of life assessment: Psychometric properties and results of the international field trial. A report from the WHOQOL Group. *Quality of life research*, 13, 299-310. doi: 10.1023/B:QURE.0000018486.91360.00
- Sommerseth, E., & Sundby, J. (2010). Women's experiences when ultrasound examinations give unexpected findings in the second trimester. *Women and Birth*, 23, 111-116. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Statham, H., Solomou, W., & Chitty, L. (2000). Prenatal diagnosis of fetal abnormality: Psychological effects on women in low-risk pregnancies. *Baillière's Clinical Obstetrics and Gynaecology*, 14(4), 731-747. doi: 10.1053/beog.2000.0108
- Teixeira, C., Figueiredo, B., Conde, A., Pacheco, A., & Costa, R. (2009). Anxiety and depression during pregnancy in women and men. *Journal of Affective Disorders*, 119(1), 142-148. doi: 10.1016/j.jad.2009.03.005
- The WHOQOL Group. (1994). Development of the WHOQOL: Rationale and current status. *International Journal of Mental Health*, 23(3), 24-56.
- Vaz-Serra, A., Canavarro, M. C., Simões, M. R., Pereira, M., Gameiro, S., Quartilho, M., . . . Paredes, T. (2006). Estudos psicométricos do instrumento de avaliação da qualidade de vida da Organização Mundial de Saúde (WHOQOL-Bref) para Português de Portugal [*Psychometric studies of the portuguese instrument of quality of life assessment from World Health Organization (WHOQOL-Bref)*]. *Psiquiatria Clínica*, 27(1), 41-49.
- World Health Organization. (1997). *WHOQOL: Measuring quality of life*. Geneva: Author.

Estudo Empírico IV

Parental psychological distress and confidence after an infant's birth: The role of attachment representations in parents of infants with congenital anomalies and parents of healthy infants

No prelo

Journal of Clinical Psychology in Medical Settings
doi: 10.1007/s10880-012-9329-9

Parental psychological distress and confidence after an infant's birth: The role of attachment representations in parents of infants with congenital anomalies and parents of healthy infants

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

The present study aimed to examine parental psychological distress and confidence after the infant's birth, when parenting an infant with a diagnosis of a congenital anomaly, and to understand the role of attachment representations on parental adjustment. Parents of infants with a congenital anomaly (44 couples) and parents of healthy infants (46 couples) completed measures of adult attachment representations and of psychological distress and parental confidence (one month after the infant's birth). Results showed no group differences in psychological distress. Mothers in the clinical group presented lower confidence than mothers in the comparison group, while for fathers the inverse pattern was found, showing their involvement in the caretaking of the infant. Insecure attachment representations predicted parental psychological distress, and a moderator role of group was found only for fathers; these results highlight the role of secure attachment representations as an individual resource in stress-inducing situations.

Keywords: attachment representations; parental confidence; parents of infants with a congenital anomaly; psychological distress.

Introduction

In accordance to the family systems theory (Cox & Paley, 2003), the birth of an infant adds complexity to the family system and implies a set of changes and reorganizations in the existing familial context, which may be stressful and demanding for parents (Cowan & Cowan, 1992). Both parents must adapt to their new roles (e.g., being a mother/father) and learn how to effectively care for their infants (Mendes, 2007). In addition, the birth of an infant is a time in which parents experience several interpersonal changes, especially in their relationships with their partner and their new child (Monk, Leight, & Fang, 2008). For these reasons, parents' attachment representations become activated and begin to play a role in parental adjustment during this period (Feeney, Alexander, Noller, & Hohaus, 2003).

A pre- or postnatally diagnosed congenital anomaly (CA) in the infant affects the entire family system (Seligman & Darling, 2007). CAs include structural or functional anomalies that arise during intrauterine development and are present at birth (Crowley, 2010). Beyond dealing with the changes brought by the transition to parenthood, parents of infants who possess a CA also have to cope with their disrupted expectations of a healthy and perfect baby (e.g., Lalor, Begley, & Galavan, 2009) and with the CA requirements (Messias, Gilliss, Sparacino, Tong, & Foote, 1995). Caring for an infant with a CA in the early postpartum period may require extensive care and monitoring associated with the CA (Carnevale, Alexander, Davis, Rennick, & Troini, 2006; Mazer et al., 2008), in addition to the typical parental tasks. Therefore, when compared to parenting a healthy infant, raising an infant with a CA may be a more stressful experience (Messias et al., 1995) that impacts a parent's levels of psychological distress (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2012) and may constrain the development of parental confidence (Freeman, 2006). This study aimed to compare parental adjustment (operationalized as psychological distress and confidence) in parents of infants with a CA and parents of healthy infants and to examine whether parental adjustment was influenced by attachment representations.

Gender specificities should also be considered, as it has been well recognized that mothers and fathers experience the transition to parenthood in different ways. In response to the additional tasks of childcare after the infant's birth, mothers and fathers tend to adopt more traditional gender roles regarding work and family: while mothers assume the role of main caregivers (i.e., infant care and household), fathers assume the role of providers (i.e., managing family finances; Belsky, Lang, & Huston, 1986; Katz-Wise, Priess, & Hyde, 2010). Consistently, mothers usually report a greater investment in the parental role than their partners, and fathers mention an increased investment in the worker role, while mothers' investment tends to decrease (Cowan & Cowan, 1988). This may be related with women's main biological role in childbearing (e.g., pregnancy, lactation), cultural expectations regarding motherhood, and social constraints (e.g., maternity leave, gender differences in income; Katz-Wise et al., 2010). Therefore, for

mothers, becoming a parent may be a more life-changing transition than for fathers, which may lead to more adjustment difficulties (e.g., Demo & Cox, 2000). In couples whose infant has a CA, mothers also tend to assume the role of main caregivers when compared to fathers (e.g., Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroeck, & Tibboel, 1999).

Parental adjustment

Psychological distress

A diagnosis of a CA can be a stress-inducing event for the family that only increases the stress created by the transition to parenthood (Fonseca et al., 2012). However, few studies have compared parental adjustment to the birth of an infant with a CA with the adjustment of parents of a healthy infant. Skari et al. (2006) found that six weeks after birth, parents of infants with a surgically correctable CA had higher levels of psychological distress than parents of healthy infants. Comparing their data to normative data, Brosig, Whitstone, Frommelt, Frisbee, and Leuthner (2007) found that parents of children with congenital heart disease had higher levels of psychological distress at the time of their child's birth. Aite et al. (2003) also found higher levels of anxiety in parents of infants with a surgically correctable CA. Finally, another study without a comparison group found that 65% of mothers and 45% of fathers with sick newborns who had been admitted to a Newborn Intensive Care Unit (NICU) had clinical levels of depression that significantly decreased three months after the infant's birth to 16% and 22%, respectively (Pinelli et al., 2008).

The majority of studies of both mothers and fathers of infants born with a CA found that mothers presented higher levels of psychological distress than fathers (e.g., Pinelli et al., 2008; Skari et al., 2006) after the infant's birth, which may be explained by the mothers' primary role as caregivers (Hunfeld et al., 1999). However, other studies did not find gender differences in levels of psychological distress (Brosig et al., 2007).

Parental confidence

Parental confidence has been defined as the perceived level of competence in one's parenting skills (also known as parental competence or parental self-efficacy; Crnec, Barnett, & Matthey, 2010), including the ability to take care of the child, to recognize and respond to the infant's needs, and to feel satisfied in the parenting role (Hess, Teti, & Hussey-Gardner, 2004; Mercer & Ferketich, 1994; Teti & Gelfand, 1991; Zahr, 1993).

Parental confidence may be influenced by the infant's characteristics, such as health problems or disabilities (Cutrona & Troutman, 1986; Freeman, 2006; Salonen et al., 2009). In a study comparing mothers of premature infants with mothers of full term infants, Zahr (1993)

found that the number of medical complications the infants experienced predicted maternal confidence, with more medical problems corresponding to lower levels of maternal confidence. Studies also found that parents of infants with health problems (ranging from minor complications to severe illnesses requiring intensive care) reported lower levels of parental confidence than parents of healthy infants (Freeman, 2006; Salonen et al., 2009). In a study of mothers with medically fragile infants, confidence levels were lower when the infant was classified as being less alert and when mothers displayed higher illness-related distress (Miles, Holditch-Davis, Burchinal, & Brunssen, 2011).

Regarding gender differences, studies of parents with healthy infants suggest that mothers have more confidence in their parenting skills than fathers, perhaps because mothers often have more opportunities to engage in infant care (Hudson, Elek, & Fleck, 2001; Reece & Harkless, 1998). However, few of the studies on this topic have examined parents of infants with a CA, and there is insufficient information concerning gender differences and similarities in this population. This topic, therefore, should be further explored.

The role of adult attachment in parental adjustment

Attachment representations and stress-inducing conditions

Attachment theory (Bowlby, 1969) maintains that attachment representations (i.e., internal working models of the self and of others) are particularly pronounced under stress-inducing conditions. Two orthogonal dimensions have been considered when assessing adult attachment representations: *Anxiety* and *Avoidance*. *Anxiety* refers to the degree of doubt regarding one's ability to form and maintain close relationships, fear of abandonment, and worry that others might be unsupportive when needed (characteristics associated with representations of the self). *Avoidance* refers to the degree to which individuals maintain psychological and emotional independence from significant others and desire to limit intimacy, characteristics associated with representations of others. While individuals who score low in both dimensions have secure working models (i.e., they consider themselves to be worthy of support and love and believe others to be trustworthy and supportive), individuals who score high in one or both of these dimensions present insecure working models of the self (i.e., they believe they are unworthy of support) and/or of others (i.e., they believe other people are unsupportive of them; Griffin & Bartholomew, 1994; Simpson, Rholes, Campbell, Tran, & Wilson, 2003).

Attachment security may be conceptualized as an inner resource. Individuals with secure working models tend to adjust better to stress-inducing events than individuals with insecure working models, who have been found to display greater psychological distress. Individuals with secure working models tend to appraise stressful events as less threatening, to view themselves as more capable to cope with these events and to seek emotional and instrumental support

(Mikulincer & Florian, 1995, 1998). Conversely, individuals with high scores in the Anxiety dimension tend to be excessively concerned (e.g., mental rumination, hypersensitivity) with their own distress and to overreact to their negative feelings to elicit support from others. Individuals with high scores in the Avoidance dimension seek distance (at the cognitive and behavioral levels) from the stress-inducing event, appear less sensitive to the stressor, and avoid seeking emotional or instrumental support from others (Lopez & Brennan, 2000; Mikulincer & Florian, 1995, 1998).

The role of attachment in parental adjustment to the infant's birth

Attachment representations play an important role in adjustment to parenthood, which is a time of increased stress. Insecure working models, particularly in individuals with higher scores in the Anxiety dimension, have been linked with increased prenatal and postnatal depression (Bifulco et al., 2004; Feeney et al., 2003; McMahon, Barnett, Kowalenko, & Tennant, 2005). Additionally, one study found that individuals with insecure working models generally feel less confident in their ability to relate to their children, when compared with individuals with secure working models (Rholes, Simpson, Blakely, Lanigan, & Allen, 1997).

To our knowledge, only one study has investigated the role of adult attachment representations in the psychological distress of mothers of healthy infants and mothers of infants with a CA (specifically, infants diagnosed with mild or severe congenital heart disease in the first year of life; Berant, Mikulincer, & Florian, 2001). The results of the study showed that, regardless of the group (mild diagnosis, severe diagnosis or healthy infants), mothers with Anxious or Avoidant working models displayed more psychological distress than mothers with secure working models. An interaction effect between group and attachment representations was also found, such that for mothers with avoidant working models, the levels of psychological distress varied according to the group: distress levels were significantly higher for mother of infants diagnosed with severe congenital heart disease. As the authors had hypothesized, mothers of healthy infants with Avoidant working models were better able to use their distancing strategies (e.g., cognitive and behavioral distance from the stressor event) to cope. However, the demands associated with raising an infant with a severe diagnosis may compromise the mother's ability to distance herself, thus leading to increased difficulty in coping with the infant's CA. Additionally, mothers with insecure working models (Anxious or Avoidant) were less able to cope with tasks related to motherhood (i.e., lower maternal confidence) in the severe diagnosis group. This association was not found in mothers of healthy infants. These findings suggest that secure working models can act as a protective resource during maternal adjustment to their infant's CA. However, this study was restricted to only one type of CA and the sample only comprised mothers, so the knowledge about this topic is limited and should be further explored.

Aims and hypotheses

The first goal of this study was to characterize parental adjustment (i.e., psychological distress and parental confidence) one month after an infant's birth by comparing a group of parents of infants diagnosed with a CA (clinical group) with a group of parents of healthy infants (comparison group). Gender and interaction effects were also explored. The second goal was to examine the role of attachment representations in parents' adjustment to their new role and to determine whether there was a moderating effect of group (clinical vs. comparison). The following hypotheses were established: 1) the clinical group will present significantly higher levels of psychological distress and significantly lower parental confidence than the comparison group; 2) mothers will display significantly higher levels of psychological distress and parental confidence than fathers; and 3) individuals with higher scores in the Anxiety and/or Avoidance attachment dimensions will experience higher levels of psychological distress and lower parental confidence in both groups. Given the scarce literature, we established no predictions regarding interaction effects (gender x group) on parental adjustment or regarding the moderating effect of group in the relationship between attachment representations and parental adjustment.

Methods

Participants and procedure

This study was approved by the Ethics Committees of two urban Portuguese referral hospitals: the Hospitais da Universidade de Coimbra and the Centro Hospitalar de Coimbra. Inclusion criteria for the clinical group were having an infant with a pre- or postnatally identified CA that had not experienced perinatal death or termination of pregnancy for fetal anomaly. A group of parents of healthy infants (infants without pre- or postnatally identified CAs or other medical problems) similar to the clinical group in terms of socio-demographic and clinical characteristics was constituted for comparison purposes (comparison group). Parents in both groups had to be at least 18 years of age and have a level of literacy that allowed them to comprehend the assessment protocol.

The data collection took place between September 2009 and September 2011. All parents in the clinical group were informed by the medical team about this study at the end of a medical appointment, approximately one month after the disclosure of a diagnosis of a CA (e.g., during pregnancy if the diagnoses were prenatal or one month after the birth if the diagnoses were postnatal). In this appointment, they were asked for permission to be contacted by the researchers. The researchers approached participants in the comparison group prior to their obstetric appointments. The research goals were presented to all contacted parents, and those who decided to participate signed an informed consent form. Participants were given the

questionnaires (Time 1 - assessment of adult attachment) and were told to return them to the researchers during the next medical appointment. With the exception of parents of infants with a postnatally diagnosed CA (assessed one month after the diagnosis/birth; questionnaires for this group assessed both adult attachment and parental adjustment), researchers contacted the participants (parents of infants with a prenatally diagnosed CA and parents in the comparison group) again one month after the infant's birth. At this time, researchers mailed participants the questionnaires and a pre-stamped envelope in which to return the completed questionnaires (Time 2 – assessment of parental adjustment).

The researchers initially contacted 82 couples from the clinical group and 100 couples from the comparison group. Thirty-eight couples refused to participate or did not return the questionnaires at Time 1 (participation rate: 73.2% in the clinical group and 84.0% in the comparison group) and 29 couples did not return the questionnaires at Time 2 (attrition rate: 14.6% in the clinical group and 27.4% in the comparison group). The researchers excluded 10 questionnaires from the clinical group and 16 questionnaires from the comparison group because they had been completed only by the female partner in each couple.

The final sample was composed of 44 couples in the clinical group and 46 couples in the comparison group. The sample characteristics are presented in Table 1. Participants in the two groups had similar characteristics, with the exception of maternal age and the number of gestational weeks at the infant's birth, which were significantly different between groups (see Table 1).

In the clinical group, 59.1% ($n = 26$) of the diagnoses occurred in the prenatal period. The most frequent diagnoses were congenital heart disease ($n = 16$, 17.8%) and urinary system anomalies ($n = 11$, 12.2%). Less frequent diagnoses were nervous system anomalies ($n = 5$, 5.6%), orofacial clefts ($n = 5$, 5.6%), digestive system anomalies ($n = 4$, 4.4%) and limb anomalies ($n = 3$, 3.3%). After birth, 25.0% of cases ($n = 11$) required hospitalization in the NICU and 13.6% of cases ($n = 6$) needed surgery during the first month of the infant's life.

Measures

Socio-demographic and clinical information. Socio-demographic (e.g., gender, age, marital status, educational level and professional status) and clinical information (e.g., obstetric history, including parity, history of pregnancy loss and infertility; the infant's data, including gender, gestational age at birth and weight at birth; and CA information, including type of CA, timing of diagnosis, hospitalization in NICU and need for surgery) were obtained using a questionnaire.

Table 1 | Socio-demographic and clinical characterization of the sample

	Clinical group (<i>n</i> = 44)		Comparison group (<i>n</i> = 46)		Group differences	
	Mothers	Fathers	Mothers	Fathers	Mothers	Fathers
Demographics	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>t</i> ₈₈	<i>t</i> ₈₈
<i>Age (years)</i>	31.48 (4.47)	32.89 (5.02)	29.17 (2.74)	31.64 (4.26)	2.96**	1.26
<i>Educational level (years)</i>	14.93 (3.19)	12.12 (3.37)	13.85 (2.60)	11.98 (3.84)	1.79	0.18
	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	χ^2	χ^2
<i>Professional status</i>						
Employed	38 (86.4)	41 (93.2)	37 (80.4)	44 (95.7)	4.06	2.06
Unemployed	6 (13.6)	3 (6.8)	9 (19.6)	2 (4.4)		
Obstetric history	<i>n (%)</i>		<i>n (%)</i>		χ^2	
<i>Parity</i>						
Primiparous	29 (65.9)		26 (56.5)		2.78	
Multiparous	15 (34.1)		20 (43.5)			
<i>Pregnancy loss history</i>	6 (13.6)		10 (22.8)		1.82	
<i>Infertility history</i>	5 (11.4)		2 (4.7)		1.32	
Infant's data	<i>n (%)</i>		<i>n (%)</i>		χ^2	
<i>Gender</i>						
Male	27 (61.4)		26 (56.5)		0.22	
Female	17 (38.6)		20 (43.5)			
	<i>M (SD)</i>		<i>M (SD)</i>		<i>t</i> ₈₈	
<i>Gestational weeks at birth</i>	38.55 (1.88)		39.22 (1.09)		-2.07*	
<i>Weight (gr)</i>	3197.07 (653.84)		3186.49 (504.03)		0.08	

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

Psychological distress. Psychological distress was assessed using the Portuguese version of the Brief Symptom Inventory 18 (BSI-18; Derogatis, 2000), a 5-point Likert scale (from 0 = *Not at all* to 4 = *Extremely*) composed of three dimensions (Anxiety, Depression, and Somatization). Higher values indicate the presence of more intense psychopathological symptoms. In accordance with the study goals, only the Anxiety and Depression dimensions were used. The Cronbach's alpha values in our sample ranged from .78 (Anxiety, comparison group) to .90 (Anxiety, clinical group).

Parental confidence. Confidence was assessed using the Portuguese version of the Maternal Confidence Questionnaire (Nazaré, Fonseca, & Canavarro, 2011). This 13-item questionnaire assesses responses on a 5-point frequency scale (from 1 = *Never* to 5 = *Always*), and is organized into three dimensions: Knowledge of the Infant (perceived knowledge of the

infant's needs and motivations), Caretaking Tasks (perceived competence in the caretaking tasks), and Evaluation of the Parenting Experience (perceived confidence and satisfaction associated with the parental role). In our study, the dimension Evaluation of the Parenting Experience was excluded, because its Cronbach's alpha was only .56 for the comparison group. For the remaining dimensions, Cronbach's alphas ranged from .75 (Caretaking Tasks, clinical group) to .84 (Knowledge of the Infant, comparison group).

Attachment representations. The Portuguese version of the Adult Attachment Scale – Revised (Canavarro, Dias, & Lima, 2006) was used in this study. This scale consists of 18 items that are rated on a 5-point Likert scale (from 1 = *Not at all characteristic of me* to 5 = *Extremely characteristic of me*) and organized in two dimensions (Anxiety and Avoidance, as described above; Collins, 2008). Higher scores indicate more Anxious and/or Avoidant working models (i.e., insecure working models). In our sample, Cronbach's alpha values ranged from .64 (Avoidance, comparison group) to .85 (Anxiety, clinical group).

Statistical Analyses

Analyses were conducted using IBM SPSS, version 19.0. Descriptive statistics and comparison tests (*t*-tests and chi-squared tests) were used for sample characterization.

Regarding the first goal, repeated-measures MANOVAs were used. To account for the non-independency of a couple's observations (as both members share the experience of parenting the same infant and may influence each other) and to allow for the investigation of gender differences within the couple, these analyses were performed on the couple as a unit (the database was restructured to consider each couple as the subject of the analysis and each partner's score as a different variable). Group (clinical vs. comparison) was considered the between-subjects factor and gender (mothers vs. fathers) the within-subjects factor. ANOVAs were used when the multivariate effects were significant. The post-hoc power calculations conducted for all comparison analyses performed with a significance level of .05 and power $\geq .80$ indicated that medium to large effects could be detected (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007). Effect-size measures were presented for the comparison analyses (small: $\eta^2 \geq .01$, $d \geq .20$, medium: $\eta^2 \geq .06$, $d \geq .50$, large: $\eta^2 \geq .14$, $d \geq .80$).

Regarding the second goal, several multiple linear regressions were performed to analyze moderation effects, in accordance with the procedures recommended by Aiken and West (1991). Multiple linear regressions were performed separately for mothers and fathers (due to the non-independence of a couple's observations) and for each of the dependent variables (i.e., Depressive Symptoms, Anxiety Symptoms, Knowledge of the Infant, Caretaking Tasks). Both the predictors (Anxiety and Avoidance dimensions; included after centering procedures to avoid multicollinearity) and the moderator (group; dummy-coded: 0: comparison group, 1: clinical

group) were included in the first step of the regression model (main effects). In the second step, the interaction terms (product terms: Anxiety x Group, Avoidance x Group) were introduced. Significant interactions were plotted and post hoc simple slope analyses were conducted using Modgraph (Jose, 2008) to determine their nature. The statistical significance level was set to $p < .05$, but marginally significant results ($p < .10$) were reported and discussed.

Results

Parental adjustment: Group, gender, and interaction effects

Regarding our first goal, we tested whether there were group (hypothesis 1: the clinical group will present significantly higher levels of psychological distress and significantly lower parental confidence than the comparison group) and gender (hypothesis 2: mothers will display significantly higher levels of psychological distress and parental confidence than fathers) effects. Table 2 presents the descriptive statistics for parental adjustment (psychological distress and parental confidence) according to group and gender.

Psychological distress

The multivariate effects of group (Pillai's Trace = .03, $F_{2,87} = 1.32$, $p = .271$, $\eta^2 = .03$) and gender (Pillai's Trace = .05, $F_{2,87} = 2.30$, $p = .106$, $\eta^2 = .05$) in psychological distress were not significant. Similarly, there were no significant interaction effects between group and gender affecting levels of psychological distress (Pillai's Trace = .00, $F_{2,87} = 0.13$, $p = .877$, $\eta^2 = .00$).

Parental confidence

The multivariate effect of group on parental confidence was marginally significant (Pillai's Trace = .05, $F_{2,86} = 2.43$, $p = .094$, $\eta^2 = .05$). Univariate tests showed that parents in the clinical group presented higher levels of confidence in the Caretaking Tasks dimension compared with parents in the comparison group (see Table 2). Additionally, the multivariate effect of gender was significant (Pillai's Trace = .60, $F_{2,86} = 63.49$, $p < .001$, $\eta^2 = .60$), with mothers presenting higher scores than fathers in the dimensions Knowledge of the Infant and Caretaking Tasks (see Table 2).

Finally, the multivariate interaction effect between group and gender for parental confidence was significant (Pillai's Trace = .12, $F_{2,86} = 5.91$, $p = .004$, $\eta^2 = .12$), with univariate tests revealing a significant interaction effect in the Knowledge of the Infant dimension and a marginally significant effect in the Caretaking Tasks dimension (see Table 2).

Table 2 | Parental psychological distress and confidence: Group, gender, and interaction effects

	Clinical group		Comparison group		Group effects		Gender effects		Interaction effects	
	Mothers	Fathers	Mothers	Fathers	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2
	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>						
Psychological distress										
Depressive symptoms	5.18 (4.72)	4.20 (4.93)	3.72 (3.64)	3.01 (3.81)	2.65	.03	4.62*	.05	0.27	.00
Anxiety symptoms	6.00 (5.15)	5.05 (5.11)	4.59 (3.62)	4.11 (3.63)	2.10	.02	2.41	.03	0.12	.00
Parental confidence										
Knowledge of the Infant	4.00 (0.44)	3.63 (0.53)	4.16 (0.42)	3.41 (0.49)	0.12	.00	104.82***	.55	11.56**	.12
Caretaking Tasks	4.89 (0.30)	4.26 (0.73)	4.88 (0.29)	3.87 (0.94)	4.59*	.05	74.95***	.46	3.92 [†]	.04

[†] $p < .10$. * $p < .05$. ** $p < .01$. *** $p < .001$.

The results of post-hoc analyses revealed that mothers in the comparison group ($t_{88} = -1.86$, $p = .06$, $d = .39$) had marginally significant higher scores in the Knowledge of the Infant dimension than mothers in the clinical group.

Fathers in the clinical group ($t_{88} = 1.98$, $p = .05$, $d = .42$) also had marginally significant higher scores in this dimension than fathers in the comparison group. In the Caretaking Tasks dimension, fathers in the clinical group had significantly higher scores ($t_{88} = 2.18$, $p = .03$, $d = .46$) than fathers in the comparison group, but no significant differences were found between the two groups of mothers ($t_{88} = -0.09$, $p = .931$, $d = .02$).

The influence of attachment representations on maternal and paternal adjustment: The moderator role of group

Regarding our second goal, we tested the hypothesis that more insecure attachment representations (higher scores in the Anxiety and/or Avoidance attachment dimensions) predicted worse parental adjustment (higher psychological distress and lower parental confidence) in all parents. We also investigated the moderating effect of group (clinical vs. comparison) on these relationships, for mothers and fathers.

Maternal adjustment

Table 3 presents the regression models predicting levels of maternal psychological distress and confidence.

Psychological distress

The first step of the model for depressive symptoms was significant. Higher scores in the Anxiety dimension of attachment and membership in the clinical group both predicted higher depressive scores. In addition, the first step of the regression model for anxiety symptoms was marginally significant; group was the only marginally significant predictor (see Table 3). No significant interaction effects were found between attachment representations and group for depressive or anxiety symptoms. The introduction of the interaction step did not significantly increase the explained variance of the models (see Table 3).

Parental confidence

The regression models for main effects, the step for determining the interaction effects and the final models were not significant in either of the confidence dimensions (see Table 3).

Table 3 | Predictors of maternal adjustment: Main and interaction effects

Psychological distress	Depressive symptoms		Anxiety symptoms	
	Step 1: $\Delta R^2 = .12$ $F_{3,86} = 4.06^*$	Step 2: $\Delta R^2 = .02$ $F_{2,84} = 0.72$	Step 1: $\Delta R^2 = .08$ $F_{3,86} = 2.57^\dagger$	Step 2: $\Delta R^2 = .01$ $F_{2,84} = 0.31$
	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>
Anxiety	1.70 (0.67) [*]	0.90 (1.02)	1.07 (0.72)	0.54 (1.10)
Avoidance	0.73 (1.10)	0.98 (1.59)	1.37 (1.19)	1.43 (1.72)
Group	1.88 (0.86) [*]	1.91 (0.87) [*]	1.78 (0.93) [†]	1.80 (0.94) [†]
Anxiety x Group		1.53 (1.37)		1.03 (1.48)
Avoidance x Group		0.73 (2.26)		0.28 (2.45)
Parental confidence	Knowledge of the Infant		Caretaking Tasks	
	Step 1: $\Delta R^2 = .05$ $F_{3,86} = 1.34$	Step 2: $\Delta R^2 = .04$ $F_{2,84} = 1.67$	Step 1: $\Delta R^2 = .01$ $F_{3,86} = 0.42$	Step 2: $\Delta R^2 = .04$ $F_{2,84} = 1.87$
	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>
Anxiety	-0.22 (0.44)	-0.69 (0.66)	-0.14 (0.15)	-0.22 (0.23)
Avoidance	-0.09 (0.72)	1.24 (1.03)	-0.08 (0.25)	0.37 (0.36)
Group	-1.12 (0.56) [†]	-1.15 (0.56) [*]	-0.05 (0.20)	-0.07 (0.20)
Anxiety x Group		0.62 (0.88)		0.06 (0.31)
Avoidance x Group		-2.67 (1.46) [†]		-0.96 (0.51) [†]

Note. Overall model statistics for depressive symptoms ($F_{5,84} = 2.71$, $p = .026$, $R^2 = .14$), anxiety symptoms ($F_{5,84} = 1.64$, $p = .158$, $R^2 = .09$), Knowledge of the Infant ($F_{5,84} = 1.48$, $p = .205$, $R^2 = .08$) and Caretaking Tasks ($F_{5,84} = 1.00$, $p = .421$, $R^2 = .06$).

[†] $p < .10$, ^{*} $p < .05$, ^{**} $p < .01$, ^{***} $p < .001$.

Paternal adjustment

Table 4 presents the regression models predicting paternal levels of psychological distress and confidence.

Psychological distress

For depressive symptoms, the first step of the model was significant and the second step significantly increased the explained variance of the model (see Table 4). In addition to the main effects of Anxiety and group, a significant interaction between Avoidance and group was found. Post-hoc simple slope analyses showed that higher scores in the Avoidance dimension of attachment were associated with higher levels of depressive symptoms for fathers in the clinical group ($b = 5.30$, $SE = 1.70$, $t = 3.12$, $p = .002$), but not for fathers in the comparison group ($b = -1.47$, $SE = 2.03$, $t = -0.72$, $p = .47$; see Figure 1).

Table 4 | Predictors of paternal adjustment: Main and interaction effects

	Psychological distress			
	Depressive symptoms		Anxiety symptoms	
	Step 1: $\Delta R^2 = .10$ $F_{3,86} = 3.25^*$ <i>B (SE)</i>	Step 2: $\Delta R^2 = .07$ $F_{2,84} = 3.70^*$ <i>B (SE)</i>	Step 1: $\Delta R^2 = .08$ $F_{3,86} = 2.42^\dagger$ <i>B (SE)</i>	Step 2: $\Delta R^2 = .05$ $F_{2,84} = 2.23$ <i>B (SE)</i>
Anxiety	0.85 (0.70)	2.37 (1.03)*	1.00 (0.72)	1.93 (1.06) [†]
Avoidance	2.59 (1.34) [†]	-1.47 (2.03)	1.91 (1.36)	-1.49 (2.10)
Group	1.71 (0.91) [†]	1.66 (0.89) [†]	1.38 (0.93)	1.34 (0.92)
Anxiety x Group		-2.54 (1.38) [†]		-1.47 (1.42)
Avoidance x Group		6.77 (2.65)*		5.73 (2.73) [†]
	Parental confidence			
	Knowledge of the Infant		Caretaking Tasks	
	Step 1: $\Delta R^2 = .09$ $F_{3,86} = 2.89^*$ <i>B (SE)</i>	Step 2: $\Delta R^2 = .00$ $F_{2,84} = 0.09$ <i>B (SE)</i>	Step 1: $\Delta R^2 = .07$ $F_{3,86} = 2.27^\dagger$ <i>B (SE)</i>	Step 2: $\Delta R^2 = .00$ $F_{2,84} = 0.02$ <i>B (SE)</i>
Anxiety	-0.54 (0.50)	-0.77 (0.76)	-0.28 (0.42)	-0.36 (0.64)
Avoidance	-1.29 (0.95)	-0.94 (1.50)	-0.71 (0.80)	-0.73 (1.26)
Group	0.99 (0.65)	0.99 (0.66)	1.02 (0.54) [†]	1.02 (0.55) [†]
Anxiety x Group		0.40 (1.02)		0.15 (0.85)
Avoidance x Group		-0.55 (1.96)		0.05 (1.64)

Note. Overall model statistics for depressive symptoms ($F_{5,84} = 3.55$, $p = .006$, $R^2 = .17$), anxiety symptoms ($F_{5,84} = 2.39$, $p = .045$, $R^2 = .12$), Knowledge of the Infant ($F_{5,84} = 1.73$, $p = .136$, $R^2 = .09$) and Caretaking Tasks ($F_{5,84} = 1.34$, $p = .257$, $R^2 = .07$).

[†] $p < .10$, * $p < .05$, ** $p < .01$, *** $p < .001$.

Additionally, a marginally significant interaction between Anxiety and group was found. Post-hoc simple slope analyses showed that higher scores in the Anxiety dimension of attachment were significantly associated with higher levels of depressive symptoms for fathers in the comparison group ($b = 2.37$, $SE = 1.03$, $t = 2.31$, $p = .02$). However, fathers in the clinical group had higher levels of depressive symptoms regardless of their scores in the Anxiety dimension of attachment ($b = -0.17$, $SE = 0.92$, $t = -0.18$, $p = .86$; see Figure 1).

The first step of the model for anxiety symptoms proved to be marginally significant, although no significant individual predictors were identified (see Table 4). The introduction of the second step did not significantly increase the explained variance of the model. However, the final model remained significant, with the Anxiety dimension of Attachment (with higher scores predicting higher anxiety symptoms) and the interaction between Avoidance and group being predictive of paternal anxiety symptoms (see Table 4).

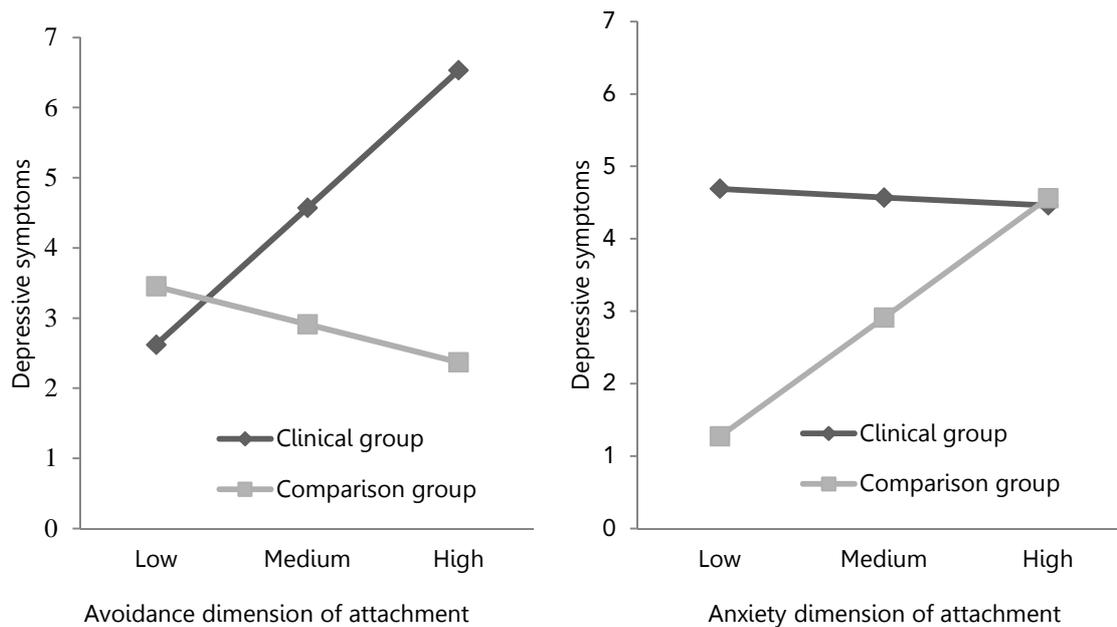


Figure 1 | The moderating effect of group on the association between Avoidance and Anxiety (attachment dimensions) and paternal depressive symptoms

Parental confidence

The first step of the model for the Knowledge of the Infant dimension was significant, although no significant individual predictors were found. Additionally, the step that included the main effects for the Caretaking Tasks dimension was marginally significant, with group being the only marginally significant individual predictor of the model (i.e., membership in the clinical group predicted higher levels of confidence in the Caretaking Tasks; see Table 4). No significant interaction effects between attachment representations and group were found in either of the dimensions of parental confidence. The interaction steps did not significantly increase the explained variance of the models (see Table 4).

Discussion

This study produced three main findings: a) parents of infants with a CA did not display greater levels of psychological distress than parents of healthy infants, and maternal and paternal experiences were also found to be similar; b) although mothers of infants with a CA showed less confidence in their parenting skills, fathers of infants with a CA had higher levels of parental confidence than fathers of healthy infants; and c) attachment representations played a role in

parental psychological distress after the infant's birth, but did not affect parental confidence, with group playing a moderator role only for fathers.

Parenting an infant with a CA: Impact on parental adjustment

Considering both indicators of parental adjustment, our results only partially confirmed our first and second hypotheses.

Psychological distress

Parents of infants who possess a CA and parents of healthy infants presented similar levels of psychological distress, and mothers in both groups were found to present higher levels of depressive symptoms than fathers, although no multivariate gender effects were found. The absence of group differences suggests that the additional challenges that may arise after the birth of an infant with a CA do not result in a significant increase in psychological distress for neither gender, which is contrary to the existing research. However, most of the existing studies on this topic use normative data for comparison rather than data obtained from parents of healthy infants (Aite et al., 2003; Brosig et al., 2007). Such comparison makes it impossible to determine which effects are specific to the CA and which are the result of the adjustment to parenthood. Additionally, the studies by Skari et al. (2006) and Pinelli et al. (2008) included parents of infants with a CA that required post-birth surgical treatment or hospitalization in a NICU. Such circumstances can create additional responsibilities for parents. Parents in this situation were a minority in our sample. Furthermore, although higher levels of psychological distress were found in parents of infants with a CA one month after the disclosure of the diagnosis (e.g., Fonseca et al., 2012), studies suggest a gradual process of parental adjustment to the diagnosis (e.g., Lalor et al., 2009), which also may explain these results.

During the first months of the infant's life, mothers face a greater number of changes by assuming the role of main caregivers of their infants (Katz-Wise et al., 2010), which may explain their increased levels of depressive symptoms, when compared to fathers. However, the absence of a multivariate gender effect underscores the similarity of the maternal and paternal experiences. In fact, such gender similarities were found in another study with parents of infants with a CA (Brosig et al., 2007) and support the idea that couples have a shared experience when facing stress-inducing events, such as raising an infant with a CA (Fonseca et al., 2012). One possible explanation is that, given the infant's additional caregiving requirements, fathers may recognize the need of becoming more involved in the caregiving role and support their partners. On the other hand, both partners suffer from mutual influences within the couple (i.e., the mothers' psychological distress may impact their partner's adjustment and vice-versa; e.g., Gray, 2003). These hypotheses should be further explored.

Parental confidence

The results on parental confidence are the primary contribution of this paper to the field. Group effects were found, although the direction of those effects was different for mothers and fathers. Specifically, mothers in the clinical group experienced lower levels of confidence in the Knowledge of the Infant dimension, but similar levels of confidence in Caretaking Tasks when compared with mothers of healthy infants. In turn, fathers in the clinical group had more parental confidence in both dimensions than fathers of healthy infants. As mothers are the main caregivers (Hunfeld et al., 1999), raising an infant with a CA may place a greater strain on them adjusting to the parenting role (Freeman, 2006). While mothers may feel able to care for their infant, they also have to process a large amount of information about the infant's diagnosis, which may contribute to these mothers' lower perceived confidence in their ability to know the child and identify their needs, when compared to mothers of healthy infants. Increased parental confidence has been associated with more effective parenting, emotional wellbeing, and better adjustment to the parenting role (Jones & Prinz, 2005). Thus, mothers of infants with a CA should be a focus of clinical attention.

The fact that fathers of infants with a CA perceived higher levels of confidence than fathers of healthy infants was an unexpected result. As parental confidence is positively related with the number of opportunities for involvement in the caregiving tasks (e.g., Leahy-Warren & McCarthy, 2011), it is possible that this result denotes increased paternal involvement in the caretaking tasks when the infant has a CA. As we mentioned earlier, this increased paternal involvement may be due to fathers' acknowledgement that caring for an infant with a CA has additional requirements, leading them to support mothers in their caregiving role. In fact, if mothers of infants with a CA perceived their ability to identify their infant's needs as lower than mothers of healthy infants, as shown by our results, they may resort more frequently to their partners for opinions and involvement in the caretaking activities. This hypothesis also aligns with the previously discussed idea of the shared experience of couples confronting an infant's diagnosis of a CA and should be further explored.

The influence of attachment representations on maternal and paternal adjustment

Our results showed that attachment representations influenced parental psychological distress but not parental confidence, which partially confirmed our third hypothesis. A different pattern of influence was found for each gender. Higher scores in the Anxiety dimension of attachment were associated with higher levels of depressive symptoms in both groups of mothers, which is consistent with previous studies of parents of healthy infants (Feeney, 2003) and

of mothers of infants with a CA (Berant et al., 2001). Regardless of the infant's medical condition, mothers are faced with the majority of stressful demands of caretaking in the first months of life (Katz-Wise et al., 2010). When dealing with these stressful demands, mothers with insecure working models of the self (those who perceive themselves as unworthy of support) tend to exacerbate their psychological distress because they are excessively preoccupied with their own distress and tend to rely on emotion-focused coping strategies (Berant et al., 2001; Mikulincer & Florian, 1998).

Additionally, our results showed that mothers with insecure working models of others did not present higher levels of psychological distress, suggesting that they were able to cope with the stressful events of caretaking through distancing coping strategies (Mikulincer & Florian, 1995, 1998). However, because diagnosis severity may increase the stress of the event so far as to compromise the effectiveness of distancing coping strategies, it is possible that Avoidant working models only influence the distress of mothers whose infants have a more severe CA (Berant et al., 2001). This hypothesis should be further explored.

For fathers, the influence of attachment representations on paternal psychological distress was moderated by group. More insecure working models of the self were predictive of higher levels of depressive symptoms in fathers of healthy infants, in accordance with previous studies (Feeney, 2003), but not in fathers of infants with a CA. Fathers of infants with a CA showed high levels of depressive symptoms regardless of the scores in the Anxiety dimension, suggesting that raising an infant with a CA has a considerable impact even on individuals with secure working models of the self. Additionally, similar to the findings of Berant et al. (2001), more insecure working models of others affected paternal psychological distress only in fathers of infants with a CA. For fathers with insecure working models of others, the stress of raising an infant with a CA seems sufficient to nullify the effectiveness of the distancing strategies, amplifying their psychological distress. Considering all the results of this study, the fact that group differences in the influence of attachment representations on parental adjustment were found only for fathers may be explained by the hypothesis that fathers of infants with a CA may be more involved in the caretaking tasks, so they are more often confronted with stressful and demanding situations than fathers of healthy infants.

Strengths and limitations

The main contribution of this study is its focus on the parental adjustment of couples raising an infant with a CA considering: a) both members of the couple; b) a comparison group of parents of healthy infants, which provides a more accurate understanding of the specific impact of the diagnosis-related demands; and c) important variables that provide a more complete understanding of the adjustment to parenthood. These latter variables operate either as

predictors (attachment) or as indicators of adjustment (parental confidence) and have seldom been studied in parents of infants with a CA.

Despite its research contributions, this study has several limitations. First, in spite of its longitudinal nature, the attachment representations of the parents of infants with a postnatal diagnosis of a CA were evaluated at the same time as parental adjustment, because it was not possible to identify during pregnancy the couples that would have an infant with a postnatally diagnosed CA. Nevertheless, attachment representations tend to be a stable construct, and no significant differences in attachment representations were found between this group of parents and the remaining parents. Second, we took a non-categorical approach to CA (inclusion of different types of CA). Although it was not possible in our study, it would be useful for future studies to objectively classify the severity of the anomalies. Third, there were statistical limitations, such as the internal consistency values marginally below the desirable of one of the used instruments, and the reduced power to detect small effects (namely interaction effects) due to limited sample size. Our results note important directions to be taken by future studies that may overcome these limitations, namely examining: a) whether there are differences in paternal involvement in the caregiving role, as a function of the infant's medical condition; and b) whether the relationship between attachment representations and parental adjustment is moderated by the severity of the CA. In addition, other issues such as interpersonal influences of attachment representations and parental adjustment within the couple and the evolution of parents' adjustment over time should also be explored.

Practical implications

The findings of the present study are clinically relevant for several reasons. First, they highlight the importance of assessing parental adjustment, including indicators such as parental confidence, of couples raising an infant with a CA. Parental confidence is of primary importance because it may function as a protective factor in high-risk conditions, such as circumstances of prolonged stress (Jones & Prinz, 2005). Especially among mothers of infants with a CA, health professionals should promote parental confidence through strategies as organizing and conducting discussion groups of parents (where information about the CA and about general parenting skills is provided, doubts are clarified, and parents' experiences are shared, in a climate of support) and home visits (in order to address parents' specific needs and concerns in their own environment).

Second, the results suggest the need to consider the paternal role. When parents are confronted with a diagnosis of a CA, health professionals should assess for the presence of adjustment difficulties in both parents, as they share a common emotional experience. The ones

at risk for maladjustment should receive specialized counseling. Interventions including both parents should be more beneficial for couples, given their joint involvement in caretaking.

Third, the results support the idea that secure attachment representations are an important individual resource in the face of stress-inducing events. Parents with insecure attachment representations should be the focus of specialized interventions that seek to modify the appraisal of stressful events (in order for them to be seen as less threatening) and the coping strategies used to address them. Some examples of intervention strategies include identifying parental skills which may be useful in dealing with the stressful situation and activating support networks that provide adequate emotional and instrumental support. Fathers should be a particular focus of concern because the lack of attachment security becomes particularly consequential when they are faced with the challenges of caring for an infant with a CA.

References

- Aiken, L. S., & West, S. G. (1991). *Multiple regression: Testing and interpreting interactions*. Newbury Park, CA: Sage.
- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Zaccara, A., Casaccia, G., & Bagolan, P. (2003). A challenging intervention with maternal anxiety: Babies requiring surgical correction of a congenital anomaly after missed prenatal diagnosis. *Infant Mental Health Journal, 24*, 571-579. doi: 10.1002/imhj.10075
- Belsky, J., Lang, M., & Huston, T. (1986). Sex typing and division of labor as determinants of marital change across the transition to parenthood. *Journal of Personality and Social Psychology, 50*, 517-522. Doi: 10.1037/0022-3514.50.3.517
- Berant, E., Mikulincer, M., & Florian, V. (2001). The association of mothers' attachment style and their psychological reactions to the diagnosis of infant's congenital heart disease. *Journal of Social and Clinical Psychology, 20*, 208-232. doi: 10.1521/jscp.20.2.208.22264
- Bifulco, A., Figueiredo, B., Guedeney, N., Gorman, L., Hayes, S., Muzik, M., et al. (2004). Maternal attachment style and depression associated with childbirth: Preliminary results from a European and US cross-cultural study. *British Journal of Psychiatry, 184*, s31-s37. doi: 10.1192/03-335
- Bowlby, J. (1969). *Attachment and loss: Vol. 1. Attachment*. New York: Basic Books.
- Brosig, C. L., Whitstone, B. N., Frommelt, M. A., Frisbee, S. J., & Leuthner, S. R. (2007). Psychological distress in parents of children with severe congenital heart disease: The impact of prenatal versus postnatal diagnosis. *Journal of Perinatology, 27*, 687-692. doi: 10.1038/sj.jp.7211807
- Canavarro, M. C., Dias, P., & Lima, V. (2006). A avaliação da vinculação do adulto: Uma revisão crítica a propósito da aplicação da Adult Attachment Scale-R (AAS-R) na população

- portuguesa [The assessment of adult attachment: A critical review of the application of Adult Attachment Scale-R (AAS-R) in the Portuguese population]. *Psicologia*, *20*, 155-187.
- Carnevale, F., Alexander, E., Davis, M., Rennick, J., & Troini, R. (2006). Daily living with distress and enrichment: The moral experience of families with ventilator-assisted children at home. *Pediatrics*, *117*, 48-60. doi: 10.1542/peds.2005-0789
- Collins, N. (2008). Adult Attachment Scale instrument and scoring. Retrieved January 12, 2012, from Open Psych Assessment: <http://www.openpsychassessment.org/standard-measures/general-social-psychology-instruments/nancy-collins-adult-attachment-scale/>
- Cowan, C. P., & Cowan, P. A. (1988). Changes in marriage during the transition to parenthood: Must we blame the baby? In G. Y. Michaels, & W. A. Goldberg (Eds.), *The transition to parenthood: Current theory and research* (pp. 114-154). Cambridge: Cambridge University Press.
- Cowan, C. P., & Cowan, P. A. (1992). *When partners become parents: The big life change for couples*. New York: Basic Books.
- Cox, M. J., & Paley, B. (2003). Understanding families as systems. *Current Directions in Psychological Science*, *12*, 193-196. doi: 10.1111/1467-8721.01259
- Crnec, R., Barnett, B., & Matthey, S. (2010). Review of scales of parenting confidence. *Journal of Nursing Measurement*, *18*, 210-240. doi: 10.1891/1061-3749.18.3.210
- Crowley, L. (2010). *An introduction to human disease: Pathology and pathophysiology correlations* (8th ed.). Sudbury: Jones and Bartlett Publishers, LLC.
- Cutrona, C., & Troutman, B. (1986). Social support, infant temperament, and parenting self-efficacy: A mediational model of postpartum depression. *Child Development*, *57*, 1507-1518.
- Demo, D., & Cox, M. J. (2000). Families with young children: A review of research in the 1990s. *Journal of Marriage and the Family*, *62*, 867-895. doi: 10.1111/j.1741-3737.2000.00876.x
- Derogatis, L. R. (2000). *The Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18): Administration, scoring and procedures manual*. Minneapolis, MN: National Computer Systems.
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A. G., & Buchner, A. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods*, *39*, 175-191.
- Feeney, J. (2003). Adult attachment, involvement in infant care, and adjustment to new parenthood. *Journal of Systemic Therapies*, *22*, 16-30. doi: 10.1521/jsyt.22.2.16.23344
- Feeney, J., Alexander, R., Noller, P., & Hohaus, L. (2003). Attachment insecurity, depression, and the transition to parenthood. *Personal Relationships*, *10*, 475-493. doi: 10.1046/j.1475-6811.2003.00061.x
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2012). Parental psychological distress and quality of life after a prenatal or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy infants. *Disability and Health Journal*, *5*, 67-74. doi: 10.1016/j.dhjo.2011.11.001

- Freeman, C. (2006). *Relative contributions of mastery, maternal affective states, and childhood difficulty to maternal self-efficacy*. Unpublished doctoral dissertation. Nevada: University of Nevada, Reno, USA.
- Gray, D. E. (2003). Gender and coping: The parents of children with high functioning autism. *Social Science & Medicine*, *56*, 631-642. doi: 10.1016/S0277-9536(02)00059-X
- Griffin, D., & Bartholomew, K. (1994). Models of the self and other: Fundamental dimensions underlying measures of adult attachment. *Journal of Personality and Social Psychology*, *67*, 430-445. doi: 10.1037/0022-3514.67.3.430
- Hess, C., Teti, D., & Hussey-Gardner, B. (2004). Self-efficacy and parenting of high-risk infants: The moderating role of parent knowledge of infant development. *Applied Developmental Psychology*, *25*, 423-437. doi: 10.1016/j.appdev.2004.06.002
- Hudson, D., Elek, S., & Fleck, M. (2001). First-time mothers' and fathers' transition to parenthood: Infant care self-efficacy, parenting satisfaction, and infant sex. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, *24*, 31-43. doi: 10.1080/014608601300035580
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology*, *24*, 631-642. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Jones, T., & Prinz, R. (2005). Potential roles of parental self-efficacy in parent and child adjustment: A review. *Clinical Psychology Review*, *25*, 341-363. doi: 10.1016/j.cpr.2004.12.004
- Jose, P. (2008). *ModGraph-I: A programme to compute cell means for the graphical display of moderational analyses: The internet version, Version 2.0*. Retrieved February 10, 2012, from <http://www.victoria.ac.nz/psyc/staff/paul-josefiles/modgraph/modgraph.php>
- Katz-Wise, S., Priess, H., & Hyde, J. (2010). Gender-role attitudes and behavior across the transition to parenthood. *Developmental Psychology*, *46*, 18-28. doi: 10.1037/a0017820
- Leahy-Warren, P., & McCarthy, G. (2011). Maternal parental self-efficacy in the postpartum period. *Midwifery*, *27*, 802-810. doi: 10.1016/j.midw.2010.07.008
- Lopez, F., & Brennan, K. A. (2000). Dynamic processes underlying adult attachment organization: Toward an attachment theoretical perspective on the healthy and effective self. *Journal of Counseling Psychology*, *47*, 283-300. doi: 10.1037/0022-0167.47.3.283
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M. v., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *6*, 102. doi: 10.1186/1477-7525-6-102
- McMahon, C., Barnett, B., Kowalenko, N., & Tennant, C. (2005). Psychological factors associated with persistent postnatal depression: Past and current relationships, defence styles and the mediating role of insecure attachment style. *Journal of Affective Disorders*, *84*, 15-24. doi: 10.1016/j.jad.2004.05.005
- Mendes, D. (2007). Lived experience by first-time parents in the postpartum. *Birth*, *15*, 119-125.
- Mercer, R., & Ferketich, S. L. (1994). Predictors of maternal role competence by risk status. *Nursing Research*, *43*, 38-43. doi: 10.1097/00006199-19941000-00009

- Messias, D., Gilliss, C., Sparacino, P., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine, 13*, 367-377. doi: 10.1037/h0089280
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1995). Appraisal and coping with a real-life stressful situation: The contribution of attachment styles. *Personality and Social Psychology Bulletin, 69*, 1203-1215. doi: 10.1177/0146167295214011
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1998). The relationship between adult attachment styles and emotional and cognitive reactions to stressful events. In J. A. Simpson, & W. S. Rholes (Eds.), *Attachment theory and close relationships* (pp. 143-165). New York: The Guilford Press.
- Miles, M., Holditch-Davis, D., Burchinal, M., & Brunssen, S. (2011). Maternal role attainment with medically fragile infants: Part 1. Measurement and correlates during the first year of life. *Research in Nursing & Health, 34*, 20-34. doi:10.1002/nur.20419
- Monk, C., Leight, K., & Fang, Y. (2008). The relationship between women's attachment style and perinatal mood disturbance: Implications for screening and treatment. *Archives of Women's Mental Health, 11*, 117-129. doi: 10.1007/s00737-008-0005-x
- Nazaré, B., Fonseca, A., & Canavarro, M. C. (2011). Avaliação da confiança parental: Versão portuguesa da Maternal Confidence Questionnaire [The assessment of parental confidence: Portuguese version of the Maternal Confidence Questionnaire]. In A. S. Ferreira, A. Verhaeghe, D. R. Silva, L. S. Almeida, R. Lima, & S. Fraga (Eds.), *Atas do VIII Congresso Iberoamericano de Avaliação Psicológica/XV Conferência Internacional de Avaliação Psicológica: Formas e Contextos* (pp. 1949-1960). Lisboa: Sociedade Portuguesa de Psicologia.
- Pinelli, J., Saigal, S., Wu, Y. W., Cunningham, C., DiCenso, A., Steele, S., . . . Turner, S. (2008). Patterns of change in family functioning, resources, coping and parental depression in mothers and fathers of sick newborns over the first year of life. *Journal of Neonatal Nursing, 14*, 156-165. doi: 10.1016/j.jnn.2008.03.015
- Reece, S., & Harkless, G. (1998). Self-efficacy, stress, and parental adaptation: Applications to the care of childbearing families. *Journal of Family Nursing, 4*, 198-215. doi: 10.1177/107484079800400206
- Rholes, W. S., Simpson, J. A., Blakely, B., Lanigan, L., & Allen, E. (1997). Adult attachment styles, the desire to have children, and working models of parenthood. *Journal of Personality, 65*, 357-385. doi: 10.1111/j.1467-6494.1997.tb00958.x
- Salonen, A., Kaunonen, M., Astedt-Kurki, P., Järvenpää, A.-L., Isoaho, H., & Tarkka, M.-T. (2009). Parenting self-efficacy after childbirth. *Journal of Advanced Nursing, 65*, 2324-2336. doi: 10.1111/j.1365-2648.2009.05113.x
- Seligman, M., & Darling, R. (2007). *Ordinary families, special children: A systems approach to childhood disability* (3rd ed.). New York: The Guilford Press.

- Simpson, J. A., Rholes, W. S., Campbell, L., Tran, S., & Wilson, C. (2003). Adult attachment, the transition to parenthood, and depressive symptoms. *Journal of Personality and Social Psychology, 84*, 1172-1187. doi: 10.1037/0022-3514.84.6.1172
- Skari, H., Malt, U., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, M., . . . Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis, 26*, 1001-1009. doi: 10.1002/pd.1542
- Teti, D., & Gelfand, D. (1991). Behavioral competence among mothers of infants in the first year: The mediational role of maternal self-efficacy. *Child Development, 62*, 918-929. doi: 10.1111/j.1467-8624.1991.tb01580.x
- Zahr, L. (1993). The confidence of Latina mothers in the care of their low birth weight infants. *Research in Nursing & Health, 16*, 335-342. doi: 10.1002/nur.4770160504

Estudo Empírico V

The role of satisfaction with social support in perceived burden and stress of parents of six-month-old infants with a congenital anomaly: Actor and partner effects

2012

Journal of Child Health Care
(versão revista submetida)

The role of satisfaction with social support in perceived burden and stress of parents of six-month-old infants with a congenital anomaly: Actor and partner effects

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

This exploratory study examined the role of satisfaction with support from family and friends on the burden and stress of parents of infants with a congenital anomaly (CA). The effects of social support were examined within the couple (actor and partner effects).

Thirty-six couples whose six-month-old infant has a CA participated in this study. The parents completed questionnaires regarding satisfaction with support, burden (Impact on Family Scale–Revised) and parenting stress (Parenting Stress Index).

The results showed that fathers directly benefited from the support they received from friends in reducing their burden, while mothers only indirectly benefited from it through the father's adjustment. The pattern was different for stress: mothers directly benefited from the support they received from their family in reducing their stress levels, while fathers benefited both directly from the support they received from friends and indirectly from the support that their partners received from family.

These results highlight that: 1) the different support needs of mothers and fathers (due to their different roles during transition to parenthood) and 2) the diffusion of benefits of social support within the couple should be taken into account when developing strategies to promote support to families of six-month-old infants with a CA.

Key-words: Actor-partner effects; burden; parenting stress; parents of infants with a congenital anomaly; social support.

Introduction

The first months of parenthood may be particularly demanding for parents who raise an infant with a congenital anomaly (CA). CAs are structural or functional anomalies present at birth that arise during intra-uterine development (e.g., congenital heart disease, cleft lip and palate, Crowley, 2010). The estimated prevalence of live births with CA in European countries was 179.81 per 10,000 births, in 2010 (European Surveillance of Congenital anomalies [EUROCAT], 2012). In addition to the usual caretaking tasks, parents must adapt to the challenges associated with the CA, as surgeries, hospitalizations, increased medical monitoring, and uncertainty about the future quality of life (Mazer et al., 2008). The infant's CA may have familial/social, and professional/financial costs for parents, which may be reflected in the parents' perceived burden (Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999) and parenting stress (Uzark & Jones, 2003). Given these increased demands, it is important to understand which resources – namely social support – should be fostered to help parents of infants with a CA to adapt to the condition.

Benefits of social support for parents during transition to parenthood

Social support is a type of interpersonal transaction that includes appraisal, emotional concern, information, or instrumental aid (House, 1981). Therefore social support is a resource to meet the individual's specific needs in a given period of life (Tak & McCubbin, 2002) and to deal with stressful situations. Social support has been considered an important resource during transition to parenthood among parents of healthy infants (Bost, Cox, Burchinal, & Payne, 2002). During this period, the parents' main needs of support are related with the responsibilities and everyday tasks of parenthood (Bost et al., 2002). Therefore, parents become closer to their nuclear family and more distant from their friends, as a way of surrounding themselves with sources of support that appropriately meet their parental needs (social nesting; Gameiro, Boivin, Canavarro, Moura-Ramos, & Soares, 2010).

Although the benefits of social support also occur in parents of children who possess a CA (Murray, Kelley-Soderholm, & Murray, 2007), some specificities make it important to further examine the nature of these effects: 1) this is a period of intense learning related to the diagnosis specificities (Griffin, 2002), so these parents' support needs may be different (e.g., needs for information, Sargent, 2009); 2) parents may have some communication difficulties within their social network concerning the diagnosis, such as sharing the news of the diagnosis (Howard, 2006), or dealing with the reactions from their social network about the infant's diagnosis (Messias, Gilliss, Sparacino, Tong, & Foote, 1995).

Research on the role of social support in the adjustment of parents of children with a CA has focused in parents of older children and shows a positive impact of overall satisfaction with

received support on the perceived burden of parents of children (mean age: eight years) with developmental disabilities (Jones & Passey, 2004) and of parents of children (mean age: 12 years) with intellectual disabilities (Mak & Ho, 2007).

Moreover, increased satisfaction with support was associated with reduced levels of parenting stress in parents of infants with cerebral palsy (Britner, Morog, Pianta, & Marvin, 2003) and in parents of children (ages between four and 18 years) with spina bifida (Macias, Saylor, Haire, & Bell, 2007). Guralnick, Hammond, Neville and Connor (2008) found that specific support related to help with childcare or advice about the child's problems, but not general emotional or instrumental support, significantly contributed to the reduction of maternal stress levels when parenting a child with a disability. Consistently, parents of infants with a CA acknowledged their family (including the partner, their own and their partner's nuclear family) as their greatest source of support (Findler, 2000; Hornby & Ashworth, 1994; Jones & Passey, 2004; Tunali & Power, 2002), with the support received from friends being perceived as less helpful (Hall & Graff, 2011). However, it is important to examine the effects of the satisfaction with support from different sources in the adjustment of parents of younger children with a CA.

During the transition to parenthood, mothers assume the role of main caregivers of the infant while fathers are the family's providers (Katz-Wise, Priess, & Hyde, 2010), so their support needs may be different. Also, studies have shown that social support seems to be more relevant to mothers' than for fathers' adjustment (Levy-Shiff, 1999). Social support was found to be beneficial for both mothers and fathers of infants with a CA (Macias et al., 2007), while other studies found benefits only for mothers (Krauss, 1993), suggesting a distinct effect of social support for both genders. This should be further explored.

The Actor-Partner Interdependence Model: The benefits of social support within the couple

The Actor-Partner Interdependence Model (APIM; Cook & Kenny, 2005) is a model of interdependence in dyadic relationships, that is, when one person's emotion, cognition, or behavior affects the emotion, cognition, or behavior of a partner. Interdependence within the family system has been documented in other contexts, suggesting that the characteristics of one member of the couple influence the characteristics and outcomes of the other member (Barr, 2011; Dorros, Card, Segrin, & Badger, 2010). As parenting is usually experienced jointly by the couple, this influence may become even more evident (Biehle & Mickelson, 2011). To our knowledge, the partner effects of support in parental adjustment, that is, the effects of one partner's perceived support on the other partner's adjustment, have not been investigated in the context of raising an infant with a CA. Furthermore, the APIM also suggests that the adjustment of both partners seems to be mutually influenced within the couple (Cook & Kenny, 2005). In fact, Gray (2003) found that fathers sometimes regarded the negative impact of dealing with their

child's disability as an indirect impact that originated from their partner's distress and suffering. Therefore, it is reasonable to hypothesize that the effect of one parent's perceived social support influence his or her partner's adjustment, via an indirect mechanism through that parent's adjustment (i.e., the individual's perceived satisfaction with support influence his/her own adjustment which, in turns, influence his/her partner's adjustment).

Research aims and hypotheses

In accordance to the APIM (Cook & Kenny, 2005), we aimed to investigate the individual (actor) and partner effects of satisfaction with social support received from family and friends in parental adjustment (burden and parenting stress). We also aimed to explore whether the partner effects (the effects of maternal/paternal satisfaction with support on her or his partner's adjustment) occur indirectly, through maternal/paternal adjustment (see Figure 1).

We established the following hypotheses: 1) increased satisfaction with support from family and friends will predict better individual adjustment; 2) increased satisfaction with support will be positively associated with the partner's adjustment; and 3) the effect of mother's/father's perception of support on her or his partner's adjustment will be indirect through their own (mother's/father's) adjustment.

Methods

Participants and Procedure

This study is part of a longitudinal study entitled "Reproductive decisions and transition to parenthood after a pre- or postnatal diagnosis of a CA" which was approved by the Ethics Committees of the Hospitais da Universidade de Coimbra (HUC) and the Centro Hospitalar de Coimbra (CHC), Portugal. Inclusion criteria for the present study were: 1) having an infant who was pre- or postnatally diagnosed with a CA, without the occurrence of perinatal death or termination of pregnancy for fetal anomaly; 2) being at least 18 years of age; and 3) having a level of literacy (educational level \geq sixth grade) that allowed for comprehension of the assessment protocol. The data collection took place between September 2009 and February 2012, in the Obstetrics and Neonatology Departments of HUC and in the Pediatric Cardiology Service of the Pediatric Hospital (CHC).

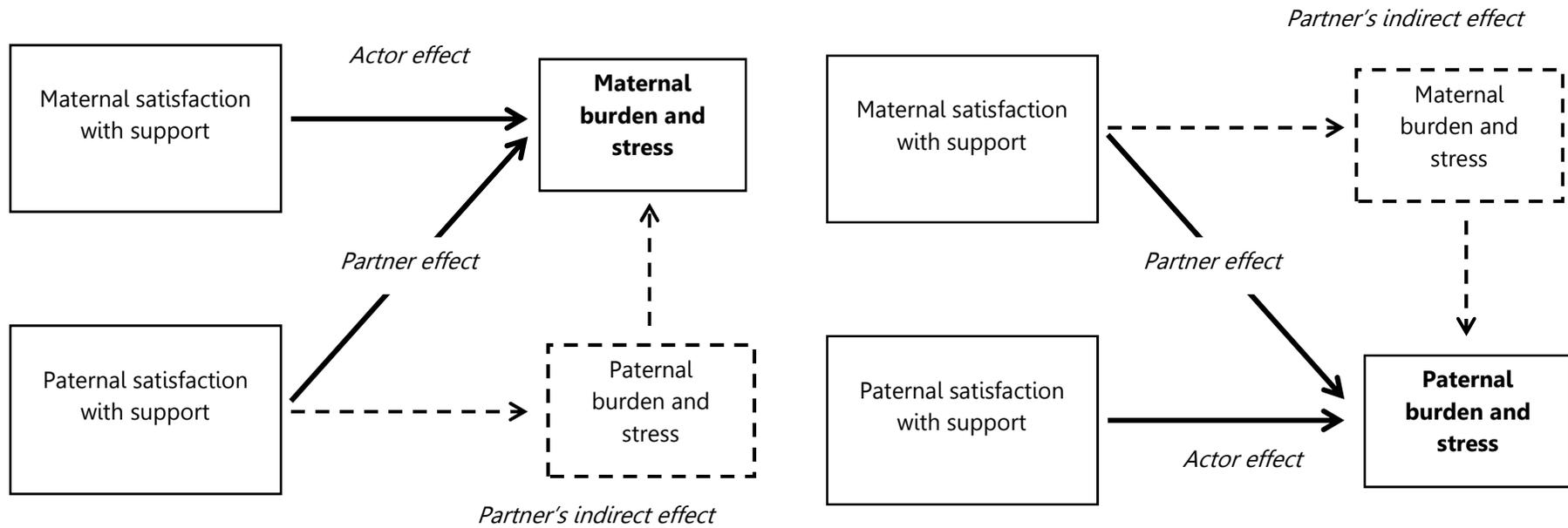


Figure 1 | Actor-Partner Interdependence Model: Actor and partner effects of satisfaction with support in parental adjustment.

Approximately one month after the disclosure of a diagnosis of a CA, all parents were informed about this study by their medical team at the end of a medical appointment and contacted by the researchers. Those who decided to participate signed an informed consent form and answered to the assessment protocol (Time 1). 82 couples were contacted, of whom 22 refused to participate/did not return the questionnaires (participation rate: 73.17%). Parents were again contacted six months after the infant's birth (Time 2). The questionnaires were mailed to the participants along with a pre-stamped envelope in which to return them after completion; 17 couples did not return the questionnaires (attrition rate: 28.33%), and seven questionnaires were excluded because they had been completed only by the female partner. No significant differences in socio-demographical characteristics or type of CA were found between parents who returned or did not return the questionnaires at Time 2 (data not shown). For the purpose of this study, only the couples who participated at Time 2 were considered.

The final sample comprised 36 couples. The sample characteristics are presented in Table 1. Mothers were younger and studied for longer than fathers. The majority of parents have learned about their infant's CA during the prenatal period.

Measures

Socio-demographic and clinical data. Socio-demographic (e.g., gender, age, educational level, and professional status) and clinical information (e.g., parity; the infant's data: gender, gestational age at birth, type of CA, timing of diagnosis, and need for surgery) were obtained using a questionnaire.

Satisfaction with support received. The satisfaction with support received from family and friends was assessed by the question: "To what extent do you feel satisfied with the support received from the following persons, since your baby's birth?". For each source of support (partner, nuclear family, partner's nuclear family, and friends), the parents classified their amount of satisfaction, using visual analogue scales (from 0 = *Not satisfied* to 100 = *Extremely satisfied*). Individual scores of satisfaction with their partner, their own family and their partner's family were averaged to compute an index of satisfaction with support received from their nuclear family.

Perceived burden. Burden was assessed using the Portuguese version of the Impact on Family Scale – Revised (IOF-R; Albuquerque, Fonseca, Pereira, Nazaré, & Canavarro, 2011). This unidimensional scale consists of 15 items (e.g., "Fatigue is a problem for me because of my child's illness"), answered in a four-point scale (from 1 = *Strongly disagree* to 4 = *Strongly agree*). Higher scores indicate a greater perceived burden associated with caring for an infant with a CA. The Cronbach's alpha values in our sample were .93 for mothers and .94 for fathers.

Table 1 | Sample socio-demographic and clinical characteristics

Socio-demographic characteristics			
	Mothers	Fathers	
	<i>M (SD)</i>	<i>M (SD)</i>	<i>t</i>
<i>Age</i>	31.72 (4.31)	33.25 (5.05)	-1.77 [†]
<i>Educational level (years)</i>	14.60 (3.30)	12.11 (2.73)	5.31 ^{**}
	<i>n (%)</i>	<i>n (%)</i>	χ^2
<i>Professional status</i>			
Employed	32 (88.9)	33 (91.7)	0.16
Unemployed	3 (11.1)	3 (8.3)	
Obstetric history and infant's data			
	<i>n (%) / M (SD)</i>		
<i>Parity</i>			
Primiparity		18 (50.0)	
Multiparity		18 (50.0)	
<i>History of pregnancy loss</i>			
Yes		6 (16.7)	
No		30 (83.3)	
<i>Infant's age at birth (gestational weeks)</i>		38.58 (1.99)	
<i>Sex</i>			
Male		21 (58.3)	
Female		15 (41.7)	
<i>Infant's age at time 2</i>		6.64 (0.90)	
CA characteristics			
	<i>n (%)</i>		
<i>Timing of diagnosis</i>			
Prenatal	21 (58.3)	[<i>M (SD)</i> = 24.67 (5.22) weeks]	
Postnatal		15 (41.7)	
<i>Type of congenital anomaly</i>			
Congenital heart disease		14 (38.9)	
Nervous system anomalies		4 (11.2)	
Digestive system anomalies		3 (8.3)	
Urinary system anomalies		9 (25.0)	
Oro-facial clefts		3 (8.3)	
Limb anomalies		3 (8.3)	
<i>Hospitalization</i>			
Yes		16 (44.4)	
No		20 (55.6)	
<i>Need for surgery</i>			
Yes		11 (30.6)	
No		25 (69.4)	

[†] $p < .10$. ^{**} $p < .01$.

Parenting stress. The Portuguese version of the Parenting Stress Index – Short Form (PSI-SF; Santos, 2011) was used to evaluate stress within the parent-child system. The scale comprises 36 items (e.g., "I often have the feeling that I cannot handle things very well") answered on a five-point scale (from 1 = *Completely disagree* to 5 = *Completely agree*), and is organized along three dimensions: Parental Distress, Parent-Child Dysfunctional Interaction, and Difficult Child. It is also possible to compute a total score of Parenting Stress, which was used in the present study. Higher scores indicate greater stress. The Cronbach's alpha values in our sample were .93 for fathers and .95 for mothers.

Data Analyses

Analyses were conducted using IBM SPSS, version 19.0. Data analyses were performed on the couple as a unit. The database was restructured to consider each couple as the subject of the analysis and each partner's score as a different variable. Descriptive statistics and comparison tests (paired *t*-tests and chi-squared tests) were used for socio-demographic characterization of the sample. Bivariate Pearson correlations were computed among the study variables.

Multiple regression analyses were conducted to investigate the effects of social support (Satisfaction with support from family, Satisfaction with support from friends) on parental adjustment (dependent variables: Burden, Parenting Stress). In accordance with the APIM (Cook & Kenny, 2005), in one set of analyses the maternal outcome variables were regressed on the maternal (actor) and paternal (partner) predictor variables, and in the other set of analyses, the paternal outcome variables were regressed on the paternal (actor) and maternal (partner) predictor variables. The socio-demographic and clinical variables were introduced in the first step of the models for control purposes if they were significantly associated with parental adjustment.

When a partner effect on the actor's adjustment was found, we examined whether this was an indirect effect through the partner's adjustment. Indirect effects were examined using a procedure that relies on nonparametric bootstrapping, which is indicated for small samples and does not require the assumption of normality of the sampling distribution. The SPSS version of Preacher and Hayes' macro "Indirect" was used (Preacher & Hayes, 2004, 2008). The presence of an indirect effect was assessed with bootstrapping (with $N = 5000$ resamples). Point-estimates and 95% confidence intervals (CI; Bias corrected and accelerated CI) were estimated for the indirect effects. An indirect effect was considered significant if zero was not included in the 95% CI.

Post-hoc power calculations made for all statistical analyses performed with a significance level of .10 and power $\geq .80$ indicated that medium to large effects ($f^2 \geq .30$) could be detected (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007). As a result, significance was defined as $p < .05$ but marginally significant results ($p \leq .10$) were also reported.

Results

Table 2 presents descriptive statistics and the bivariate associations between socio-demographic and clinical variables, social support and parental adjustment.

Table 2 | Pearson correlations between socio-demographical and clinical variables, satisfaction with support and parental adjustment

	<i>M (SD)</i>	5	6	7	8	9	10	11	12
1.Age		-.34*	.02	-.02	.18	-.18	-.00	.12	.16
2.Educational level		-.15	-.05	-.34*	.06	-.11	-.26	.09	-.26
3.Parity		-.12	-.22	-.33*	-.32	-.33 [†]	-.35*	-.21	-.08
4.Timing diagnosis		-.23	-.10	-.36*	-.15	-.28 [†]	-.33 [†]	-.13	-.04
5.Support Family–M	84.31 (16.36)	1	.28	.72**	.24	.05	.15	-.54**	-.47**
6.Support Family–F	87.49 (13.67)		1	.43**	.68***	-.17	-.22	-.26	-.33 [†]
7.Support Friends–M	67.08 (30.62)			1	.37*	.02	.11	-.37*	-.41*
8.Support Friends–F	71.97 (24.51)				1	-.27	-.38*	-.33*	-.53**
9.Burden–M	25.57 (8.24)					1	.70***	.47**	.31 [†]
10.Burden–F	25.65 (8.26)						1	.45**	.47**
11. Stress–M	65.03 (20.06)							1	.58**
12. Stress–F	63.28 (15.13)								1

[†] $p < .10$. * $p < .05$. ** $p < .01$. *** $p < .001$.

As shown in Table 2, maternal satisfaction with support from family and friends was significantly and negatively correlated with maternal and paternal parenting stress, but not with burden. Paternal satisfaction with support from family was only marginally significantly correlated with paternal levels of stress, while paternal satisfaction with support from friends was significantly correlated with paternal burden and with maternal and paternal stress. Moreover, maternal and paternal satisfaction with support from family were not significantly correlated, while maternal and paternal satisfaction with support from friends showed moderate correlations. Finally, both maternal and paternal adjustment indicators were significantly and positively correlated.

Actor and partner effects of social support on parental adjustment

Table 3 presents the regression models assessing the actor and partner effects of satisfaction with social support in the maternal and paternal adjustment (burden and parenting stress).

Burden

The model predicting maternal burden was marginally significant. As shown in Table 3, the maternal perceived burden was lower when mothers had no other children and when their partners were more satisfied with the support they received from friends (partner effect). Similarly, the model predicting paternal burden was significant. Fathers perceived lower burden when they

had no other children and when they were more satisfied with the support they received from friends (actor effect).

Table 3 | Effects of satisfaction with support from family and friends on maternal and paternal adjustment: Actor and partner effects

	Maternal adjustment			
	Burden		Parenting stress	
	β	t	β	t
Step 1 [control]				
Parity	-.42	-2.24*		
Timing of diagnosis	-.17	-0.94		
Step 2 [actor and partner effects]				
Support family_mother	.17	0.74	-.60	-2.87**
Support friends_mother	-.16	-0.64	.16	0.72
Support family_father	-.05	0.21	.02	0.09
Support friends_father	-.44	-2.01 [†]	-.26	-1.32
	$F_{6,29} = 2.08$		$F_{4,31} = 4.21^{**}$	
	<i>Adjusted R</i> ² = .16		<i>Adjusted R</i> ² = .27	
	Paternal adjustment			
	Burden		Parenting stress	
	β	t	β	t
Step 1 [control]				
Parity	-.18	-1.12		
Timing of diagnosis	-.45	-2.74*		
Step 2 [actor and partner effects]				
Support family_father	.04	0.21	.15	0.78
Support friends_father	-.61	-3.18	-.54	-2.88**
Support family_mother	.23	1.15	-.39	-1.97 [†]
Support friends_mother	-.06	-0.27	.01	0.02
	$F_{6,29} = 4.19^{***}$		$F_{4,31} = 5.64^{**}$	
	<i>Adjusted R</i> ² = .35		<i>Adjusted R</i> ² = .35	

[†] $p < .10$. * $p < .05$. ** $p < .01$. *** $p < .001$.

Parenting stress

The models predicting maternal and paternal parenting stress were both significant. As shown in Table 3, an actor effect of satisfaction with support from family was found for maternal stress: higher maternal satisfaction with support received from their family predicted lower levels of maternal stress. When considering paternal levels of stress, an actor and a partner effect were found: fathers presented lower levels of parenting stress when they were more satisfied with the support received from their friends (actor effect) and when their partners were more satisfied with the support received from the family (partner effect).

Partner effects: Indirect effects through the partner's adjustment

Table 4 presents the indirect effects of the partner's satisfaction with support on the actor's adjustment through the partner's adjustment.

As shown in Table 4, an indirect effect in the relationship between the paternal satisfaction with the support received from their friends and maternal burden was found, through paternal burden. When fathers were more satisfied with the support they received from their friends, they perceive lower burden which, in turn, was reflected in lower maternal burden. Moreover, a significant indirect effect was found in the relationship between maternal satisfaction with the support received from the family and paternal parenting stress. When mothers were more satisfied with the support received from their family, they presented lower levels of maternal stress which, in turn, contributed to decreased paternal levels of stress.

Discussion

The main finding of this exploratory study was that both parents of six-month-old infants with a CA benefited from social support. However, the benefits of social support were different when considering mothers or fathers, perceived burden or parenting stress, and family or friends as sources of support. Moreover, social support had a positive impact not only on the individual's adjustment, but also on the partner's adjustment, which suggests a diffusion of its benefits.

As shown by our results, mothers benefited directly from support offered by their family, which reduced their parenting stress levels, partially confirming our first hypothesis. The mothers' partners and nuclear family (their own and their partner's) are usually the main providers of instrumental and emotional assistance with usual childcare tasks (Bost et al., 2002), reducing maternal stress associated with the parenting role. Consistent with the study by Guralnick et al. (2008), the most useful dimension of support for mothers of infants with a CA seems to be the support related with help with childcare or advice about the child's problems. Conversely, and contrary to our expectations, maternal satisfaction with support received was not associated with a decrease in maternal burden. Mothers only benefited indirectly from the support received from their partner's friends, through father's perceived burden, supporting the APIM model. It is possible that help with childcare may be useful in terms of emotional consequences (maternal stress), but not in terms of the objective impact of the CA, such as familial routines, financial issues, interaction with medical services.

Table 4 | Partner effects of satisfaction with support on adjustment: Examining indirect effects

Partner's perception of support (X)	Partner's adjustment (M)	Actor's adjustment (Y)	Effect of X on M	Effect of M on Y	Direct effect ^a	Indirect effect ^b	Total effect of X on Y
			<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i>	<i>B (SE)</i> [95% CI]	<i>B (SE)</i>
Paternal satisfaction with support from friends	Paternal burden	Maternal burden ^c	-.55 (.14) ^{***}	.61 (.17) ^{***}	-.08 (.16)	-.34 (.13) [-.66, -.13]	-.42 (.15) [*]
Maternal satisfaction with support from the family	Maternal parenting stress	Paternal parenting stress ^d	-.54 (.14) ^{***}	.45 (.16) [*]	-.23 (.16)	-.25 (.13) [-.64, -.05]	-.47 (.15) ^{**}

Note. Standardized coefficients are presented. Significant indirect effects in bold.

^a Direct effect: effect of X on Y, controlling for M. ^b Indirect effect: effect of X on Y, through M. ^c $F_{4,31} = 7.74, p < .001$, Adjusted $R^2 = .44$. ^d $F_{2,33} = 9.61, p < .001$, Adjusted $R^2 = .33$.

[†] $p < .10$, ^{*} $p < .05$, ^{**} $p < .01$, ^{***} $p < .001$.

Therefore, the maternal perceived burden of caring for an infant with a CA may be more effectively reduced with the support from other sources, as health professionals or social services. This hypothesis should be further explored.

The support received from friends was not beneficial for maternal adjustment. Similarly to mothers of healthy infants (Gameiro et al., 2010), mothers of infants with a CA may distance themselves from their social network (e.g., friends) during the first months of parenthood. This withdrawal may be due to the time spent in providing care to the infant (Lawoko & Soares, 2003), or with some difficulties in communicating about diagnosis-related issues (Messias et al., 1995). The lack of contact with friends may lead to lower maternal satisfaction with the support received from them, but also to its lower impact on maternal adjustment.

A different pattern of results was found for fathers. In fact, fathers benefited directly from the support they received from friends in reducing their perceived burden and parenting stress. Three reasons may explain our results. First, despite participating in some caregiving tasks, fathers usually assume the role of economic providers for the family (Katz-Wise et al., 2010). Thus, as opposed to the mothers' needs, fathers' support needs may be more related with assistance with financial or legal issues, or increased flexibility with work issues, so their friends can be a useful source of help. Second, fathers may have more opportunities than mothers for interaction within their social network (friends) given their earlier return to work and to daily routines (Feldman, Sussman, & Zigler, 2004). As suggested by Olsson and Hwang (2006), the greater paternal involvement in the professional responsibilities seems to be associated with better well-being for fathers, compared to their partners. It is possible that, due to this involvement, fathers receive and benefit more from their friends' support. Third, research shows that fathers try to assume the protective role of their partners (Locock & Alexander, 2006), trying not to show their own suffering, as we explain below. Therefore, fathers may rely more on friends than on their family for emotional support to deal with the emotional constraints associated with the parenting experience.

In fact, paternal satisfaction with support received from their family was not reflected in better paternal adjustment. Fathers may be concerned with their partners' suffering after the infant's diagnosis of a CA, seeking to direct their efforts to support and to protect them (Locock & Alexander, 2006). Therefore, fathers may neglect their own suffering and may avoid to adequately communicate their support needs to their partner or family, or even engage in help-seeking behaviors. Even when fathers receive support from their partner and family, they may be worried about their inability to fulfill their role as protectors. These factors may help to explain why support from family did not prove to be beneficial for paternal adjustment. However, fathers showed benefits in parenting stress when mothers were more satisfied with the support they received from the family, as suggested by the APIM model. This benefit was indirect through the mother's adjustment. As primary caregivers, mothers may experience more emotional constraints associated with the parenting role (i.e., parenting stress) than fathers. As maternal suffering associated with the impact of the child's diagnosis is sometimes reflected in fathers' adjustment

(Gray, 2003), the factors which contribute to improve the maternal adjustment – in this case, social support – were also reflected in a better paternal adjustment. In fact, when mothers were more satisfied with the support received from their family, they may perceive fewer restrictions associated with the demands of parenting role, which reflects in reduced levels of maternal stress. Moreover, these reduced levels of maternal stress were likely reflected in better interactions within the couple (e.g., less conflict, improved communication), which consequently improved paternal adjustment. In sum, our results confirmed the diffusion of benefits of social support within the couple, supporting the interdependence in the dyadic relationships (Cook & Kenny, 2005).

Although the present study represents an important contribution to the field, it has several limitations. The first limitation is the study's reduced power to detect small effects due to the sample size. Second, the assessment of social support (overall satisfaction with support from different sources, assessed with single-items) did not allow to differentiate between different types of support (e.g., emotional, instrumental) provided by each source, which can be examined in future studies. The last limitation is the non-categorical approach to CA (that is, the inclusion of different types of CAs). Although our goal was to examine the common experience of these parents, future studies may investigate whether these patterns are similar for parents of infants with different types of CA.

The findings of the present study lead to some clinical implications. First, social support is a beneficial resource for adjustment among parents of infants with a CA during the first months of the infant's life, and this support should be a target of evaluation and should be promoted. However, it should be noted that mothers' and fathers' support needs are different, and that the effects of support are different for different adjustment indicators. Second, it should be noted that the demands of childcare prevent mothers from activating some sources of their social network (e.g., friends). In addition to the assessment of maternal satisfaction with the support received, it would be important to consider other issues, such as opportunities for interaction and for requesting help from friends who usually provide support. Third, given the diffusion of benefits of social support within the couple, both partners should be included in the assessment and intervention processes, and the mutual influences within the couple as well as the different mechanisms by which they may occur should be taken into account.

Finally, parents who report lower satisfaction with the support received from their network may be at a higher risk of poor adjustment and should be targeted for specialized counseling, to help them develop strategies for 1) identifying their support needs and sources in their social network who may provide that support; 2) communicating their support needs with their social network and activating help-seeking behaviors; and 3) communicating with different sources of support about satisfactory and unsatisfactory aspects of the support received to improve satisfaction with subsequent support.

References

- Albuquerque, S., Fonseca, A., Pereira, M., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011). Estudos psicométricos da versão Portuguesa da Escala de Impacto Familiar (EIF) [Psychometric studies of the portuguese version of the Impact on Family Scale]. *Laboratório de Psicologia, 9*(2), 175-189.
- Barr, P. (2011). A dyadic analysis of negative emotion personality predisposition effects with psychological distress in neonatal intensive care unit parents. *Psychological Trauma: Theory, Research, Practice and Policy*. doi: 10.1037/a0024228
- Biehle, S., & Mickelson, K. (2011). Personal and co-parent predictors of parenting efficacy across the transition to parenthood. *Journal of Social and Clinical Psychology, 30*(9), 985-1010. doi: 10.1521/jscp.2011.30.9.985
- Bost, K., Cox, M., Burchinal, M., & Payne, C. (2002). Structural and supportive changes in couples' family and friendship networks across the transition to parenthood. *Journal of Marriage and Family, 64*(2), 517-531. doi: 10.1111/j.1741-3737.2002.00517.x
- Britner, P., Morog, M., Pianta, R., & Marvin, R. (2003). Stress and coping: A comparison of self-report measures of functioning in families of young children with cerebral palsy or no medical diagnosis. *Journal of Child and Family Studies, 12*(3), 335-348. doi: 10.1023/A:1023943928358
- Cook, W., & Kenny, D. (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
- Crowley, L. (2010). *An introduction to human disease: Pathology and pathophysiology correlations* (8th ed.). Sudbury: Jones and Bartlett Publishers, LLC.
- Dorros, S., Card, N., Segrin, C., & Badger, T. (2010). Interdependence in women with breast cancer and their partners: An interindividual model of distress. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 78*(1), 121-125. doi: 10.1037/a0017724
- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2012). Prevalence Tables. Retrieved May 26, 2012, from <http://www.eurocat-network.eu/accessprevalencedata/prevalencetables>
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A. G., & Buchner, A. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods, 39*, 175-191.
- Feldman, R., Sussman, A. L., & Zigler, E. (2004). Parental leave and work adaptation at the transition to parenthood: Individual, marital and social correlates. *Journal of Applied Developmental Psychology, 25*(4), 459-479. doi: 10.1016/j.appdev.2004.06.004
- Findler, L. S. (2000). The role of grandparents in the social support system of mothers of children with a physical disability. *Families in Society, 81*(4), 370-381. doi: 10.1606/1044-3894.1033

- Gameiro, S., Boivin, J., Canavarro, M. C., Moura-Ramos, M., & Soares, I. (2010). Social nesting: Changes in social network and support across the transition to parenthood in couples that conceived spontaneously or through assisted reproductive technologies. *Journal of Family Psychology, 24*(2), 175-187. doi: 10.1037/a0019101
- Gray, D. E. (2003). Gender and coping: The parents of children with high functioning autism. *Social Science & Medicine, 56*(3), 631-642. doi: 10.1016/S0277-9536(02)00059-X
- Griffin, T. (2002). Supporting families of infants with congenital heart disease. *Newborn and Infant Nursing Reviews, 2*(2), 83-89. doi: 10.1053/nbin.2002.33051
- Guralnick, M. J., Hammond, M. A., Neville, B., & Connor, R. T. (2008). The relationship between sources and functions of social support and dimensions of child- and parent-related stress. *Journal of Intellectual Disability Research, 52*, 1138-1154. doi: 10.1111/j.1365-2788.2008.01073.x
- Hall, H., & Graff, J. (2011). The relationships among adaptive behaviors of children with autism, family support, parenting stress, and coping. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing, 34*, 4-25. doi: 10.3109/01460862.2011.555270
- Hornby, G., & Ashworth, T. (1994). Grandparents' support for families who have children with disabilities. *Journal of Child and Family Studies, 3*(4), 403-412. doi: 10.1007/BF02233999
- House, J. S. (1981) *Work stress and social support*. Reading, MA: Addison-Wesley.
- Howard, E. (2006). Family-centered care in the context of fetal abnormality. *Journal of Perinatal & Neonatal Nursing, 20*(3), 237-242.
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology, 24*(6), 515-520. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Jones, J., & Passey, J. (2004). Family adaptation, coping and resources: Parents of children with developmental disabilities and behaviour problems. *Journal on Developmental disabilities, 11*(1), 31-46.
- Katz-Wise, S., Priess, H., & Hyde, J. (2010). Gender-role attitudes and behavior across the transition to parenthood. *Developmental Psychology, 46*(1), 18-28. doi: 10.1037/a0017820
- Krauss, M. W. (1993) Child-related and parenting stress: Similarities and differences between mothers and fathers of children with disabilities. *American Journal on Mental Retardation, 97*, 393-204.
- Lawoko, S., & Soares, J. (2003). Social support among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Scandinavian Journal of Occupational Therapy, 10*, 177-187. doi: 10.1080/11038120310016779
- Levy-Shiff, R. (1999). Fathers' cognitive appraisals, coping strategies, and support resources as correlates of adjustment to parenthood. *Journal of Family Psychology, 13*(4), 554-567. doi: 10.1037/0893-3200.13.4.554

- Locock, L., & Alexander, J. (2006). Just a bystander? Men's place in the process of fetal screening and diagnosis. *Social Science & Medicine*, *62*, 1349-1359. doi: 10.1016/j.socscimed.2005.08.011
- Macias, M., Saylor, C., Haire, K., & Bell, N. (2007). Predictors of paternal versus maternal stress in families of children with neural tube defects. *Children's Healthcare*, *36*(2), 99-115. doi: 10.1080/02739610701334558
- Mak, W., & Ho, G. (2007). Caregiving perceptions of chinese mothers of children with intellectual disability in Hong Kong. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, *20*, 145-156. doi: 10.1111/j.1468-3148.2006.00309.x
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M. v., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *6*(102), 102-110. doi: 10.1186/1477-7525-6-102
- Messias, D., Gilliss, C., Sparacino, P., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine*, *13*(3/4), 367-377. doi: 10.1037/h0089280
- Murray, C., Kelley-Soderholm, E., & Murray, T. (2007). Strengths, challenges, and relational processes in families of children with congenital upper limb differences. *Families, Systems & Health*, *25*(3), 276-292. doi: 10.1037/1091-7527.25.3.276
- Olsson, M. B., & Hwang, C. P. (2006). Well-being, involvement in paid work and division of child-care in parents of children with intellectual disabilities in Sweden. *Journal of Intellectual Disability Research*, *50*(12), 963-969. doi: 10.1111/j.1365-2788.2006.00930.x
- Preacher, K., & Hayes, A. (2004). SPSS and SAS procedures for estimating indirect effects in simple mediation models. *Behavior Research Methods, Instruments & Computers*, *36*(4), 717-731. doi: 10.3758/BF03206553
- Preacher, K., & Hayes, A. (2008). Asymptotic and resampling strategies for assessing and comparing indirect effects in multiple mediator models. *Behavior Research Methods*, *40*(3), 879-891. doi: 10.3758/BRM.40.3.879
- Santos, S. (2011). *Versão Portuguesa do Parenting Stress Index (PSI) - Forma Reduzida: Estudo com uma amostra de mães de crianças com idade inferior a 5 anos [Portuguese version of the Parenting Stress Index (PSI) – Short Form: Study with a sample of mothers of children with five years or younger]*. Poster presented at the VIII Congresso Iberoamericano de Avaliação Psicológica/XV Conferência Internacional de Avaliação Psicológica: Formas e Contextos, Lisboa, Portugal.
- Sargent, A. (2009). Predictors of needs in mothers with infants in the neonatal intensive care unit. *Journal of Reproductive and Infant Psychology*, *27*(2), 195-205. doi: 10.1080/02646830802350849

- Tak, Y. R., & McCubbin, M. (2002). Family stress, perceived social support and coping following the diagnosis of a child's congenital heart disease. *Journal of Advanced Nursing, 39*(2), 190-198. doi: 10.1046/j.1365-2648.2002.02259.x
- Tunali, B., & Power, T. G. (2002). Coping by redefinition: Cognitive appraisals in mothers of children with autism and children without autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders, 32*(1), 25-34. doi: 10.1023/A:1017999906420
- Uzark, K., & Jones, K. (2003). Parenting stress and children with heart disease. *Journal of Pediatric Health Care, 17*, 163-168. doi: 10.1067/mpH.2003.22

Estudo Empírico VI

Parenting an infant with a congenital anomaly: An exploratory study on patterns of adjustment from diagnosis to six months post-birth

No prelo

Journal of Child Health Care

Parenting an infant with a congenital anomaly: An exploratory study on patterns of adjustment from diagnosis to six months post-birth

Ana Fonseca, Bárbara Nazaré, & Maria Cristina Canavarro

Abstract

The present study examined psychological adjustment in parents of infants with congenital anomalies, focusing on the interval from the disclosure of the diagnosis to six months after the infant's birth, and considering the effects of the parent's gender and the timing of diagnosis (pre- vs. postnatal). Within-group diversity was also examined, by identifying distinct patterns of individual adjustment over time. Parents of 43 infants (43 mothers and 36 fathers) with a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly answered questionnaires assessing psychological distress and quality of life, one month after the disclosure of the diagnosis and six months after the infant's birth.

Results showed a significant reduction in psychological distress and a significant increase in Physical quality of life over time, for both parents, regardless of the timing of diagnosis. Fifty-seven per cent of parents presented a pattern of recovery from diagnosis to six months post-birth, and 26.6% presented a pattern of resilience. However, 15.2% of parents showed chronic adjustment difficulties. Findings suggest that most parents tend to adjust to their infant's CA, although some experienced difficulties and should be targeted for specialised counselling. Both members of the couple should be acknowledged, as both experience similar patterns of adjustment.

Key-words: parents of infants with a congenital anomaly; patterns of adjustment; psychological distress; quality of life.

Introduction

Congenital anomalies (CA) are structural or functional anomalies present at birth that arise during intrauterine development (Crowley, 2010). CA may occur in different body structures or systems, such as digestive system anomalies, nervous system anomalies, congenital heart disease, cleft lip and palate, among others (European Surveillance of Congenital Anomalies [EUROCAT], 2009). A pre- or postnatal diagnosis of a CA disrupts parental expectations of a healthy baby (Aite et al., 2003). Research has shown that the disclosure of a diagnosis of a CA is a distressing experience for parents, who display higher levels of psychological distress than parents of healthy infants (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2012; Kaasen et al., 2010). Furthermore, parents must adapt to the medical demands of the CA (e.g., surgeries, hospitalisations, increased medical monitoring) and to its associated challenges of care during the first months after their infant's birth (Mazer et al., 2008; Messias, Gilliss, Sparacino, Tong, & Foote, 1995).

Existing qualitative studies have shown that parents experience a progressive reduction of their intense negative emotional reactivity, although some do experience continuing psychosocial difficulties over time (e.g., Aite et al., 2006; Drotar, Baskiewicz, Irvin, Kennell, & Klaus, 1975). However, effective changes in parental adjustment over time can only be examined with prospective quantitative studies, which have been rare. The present study aimed to prospectively examine the adjustment of parents of infants with a CA, from the moment of the diagnosis to six months after the infant's birth. Parents' individual adjustment was operationalized considering not only the presence/absence of psychological distress, but also the individual's overall well-being, i.e., individual's perception of quality of life (QoL; the subjective perception of well-being in the physical, psychological, social, and environmental life domains; The WHOQOL Group, 1994).

To our knowledge, only one study has examined parents' psychological distress from the diagnosis of their infant's CA to six months post-birth; that study found no significant changes between the two assessment points when the diagnosis occurred in the prenatal period, but a significant decline in psychological distress was found for parents whose infant's diagnosis occurred in the postnatal period (Brosig, Whitstone, Frommelt, Frisbee, & Leuthner, 2007). Also, Skari et al. (2006) conducted a prospective longitudinal study assessing psychological distress few days, six weeks and six months post-birth in parents of infants with CAs. Although changes in parents' psychological distress over time were not examined, these authors showed that higher psychological distress levels few days after the infant's birth predicted higher psychological distress levels six months post-birth (Skari et al., 2006), suggesting some continuity in adjustment. Both studies found that parents in the prenatal group displayed higher psychological distress six months post-birth, compared to the postnatal group (Brosig et al., 2007; Skari et al., 2006). The prenatal diagnosis may be a long-lasting stressor because those parents deal with greater

uncertainty until the infant's birth, when more information about the CA is available (Brosig et al., 2007).

In addition, one study found that parents of infants with a CA presented similar levels of QoL six weeks and six months after the infant's birth (Mazer et al., 2008). Similarly, in another study, mothers of infants with a prenatal diagnosis of a CA exhibited the same levels of satisfaction with life, at the moment of diagnosis and six months post-birth (Dale et al., 2012). To our knowledge, no studies examined the effect of timing of diagnosis on parents' QoL over time, which was a focus of this study.

Gender differences in parents' adjustment were also investigated. Regarding psychological distress, while some studies found no gender differences from the diagnosis to six months post-birth (Brosig et al., 2007), others found that existing gender differences in the early post-diagnosis stage (mothers experienced higher psychological distress than fathers, e.g., Fonseca et al., 2012) tended to be less pronounced six months post-birth (e.g., mothers experienced higher levels of anxiety, but not depression, than fathers, Skari et al., 2006) or even to disappear (e.g., no gender differences found three, six, nine, and 12 months post-birth, Pinelli et al., 2008), suggesting similarities between maternal and paternal experiences. When considering QoL, studies found that mothers presented lower QoL than fathers in the early post-diagnosis stage (Fonseca et al., 2012), but also six weeks and six months post-birth (Mazer et al., 2008).

Some studies support within-group diversity when parenting an infant with a CA, showing that while most parents present a gradual adjustment, some present chronic difficulties (e.g., 35.2% of parents showed clinically significant psychological distress six months post-birth, Brosig et al., 2007). However, to our knowledge, individual patterns of adjustment over time have not been investigated. Research on individual adjustment to other stressful life events has identified four prototypical trajectories representing the heterogeneity of individual adjustment over time (Bonanno, 2004). The two most common trajectories are *recovery* (intense distress reactions in the acute phase followed by a gradual return to baseline functioning) and *resiliency* (maintenance of healthy adjustment over time, without disruption of functioning). In addition, a small proportion of individuals present chronically high levels of distress (*chronic*), while others display moderate distress levels in the acute phase, which progressively worsen over time (*delayed*; Bonanno, 2004; Bonanno, 2005; deRoon-Cassini, Mancini, Rusch, & Bonanno, 2010).

The present study aimed to examine both parents' adjustment when parenting an infant with a CA, from the early post-diagnosis stage to six months post-birth, considering both group and individual (patterns of adjustment) levels. The effects of gender and timing of diagnosis were also examined. Parents' adjustment was operationalized as a multidimensional construct (Jomeen, 2004) that is not restricted to the absence of psychological distress, but also includes the subjective perception of physical, psychological, and social QoL. Although psychological distress and QoL are moderately related constructs – such that individuals with higher levels of psychological distress are more likely to present lower levels of QoL –, they do not overlap (Gameiro, Carona, Silva, & Canavaro, 2010). Given our understanding of the literature, we

hypothesise that: H1) parents will present lower psychological distress and similar levels of QoL over time; H2) parents in the prenatal diagnosis group will present higher psychological distress at T1 and at T2 than parents in the postnatal diagnosis group; H3) mothers will present lower QoL and higher anxiety symptoms than fathers over time.

Methods

Participants and Procedure

This study was approved by the Ethics Committees of the Hospitais da Universidade de Coimbra and the Centro Hospitalar de Coimbra (Portugal). Inclusion criteria for the study were: having an infant who was pre- or postnatally diagnosed with a CA, being at least 18 years of age, and having a level of literacy that permitted comprehension of the assessment protocol.

Data collection took place between September 2009 and February 2012. All parents who met the inclusion criteria were informed about this study by their medical team in a medical appointment, approximately one month after the disclosure of the diagnosis. The researchers presented the research goals to parents and those who decided to participate in the study signed an informed consent form, were given the questionnaires (Time 1 –T1) and were asked to return them to the researchers during the next medical appointment. Six months after the infant's birth (Time 2 –T2) the parents were mailed the questionnaires along with a pre-stamped envelope in which to return them after completion.

From the 82 couples initially contacted, 22 couples refused to participate or did not return the questionnaires at T1 (participation rate: 73.2%). At T2, 17 couples did not return the questionnaires (attrition rate: 28.3%). Participants who answered both assessments did not differ from the participants who dropped-out from the study, regarding socio-demographic characteristics and type of CA (data not shown). The final sample comprised 43 couples (43 mothers and 36 fathers). The sample characteristics are presented in Table 1. At T2, the infant's average age was 6.65 months ($SD = 0.87$).

Measures

Psychological distress was evaluated with the Portuguese version of the Brief Symptom Inventory 18 (Derogatis, 2000), a 5-point Likert scale from 0 (*Not at all*) to 4 (*Extremely*), composed of three dimensions: Anxiety and Depression, which were used in the study, and Somatisation. Higher values indicate more intense psychopathological symptoms. Cronbach's

alphas in our sample ranged from .88 (Depression –mothers) to .91 (Anxiety –mothers) at T1 and .92 (Depression –mothers) to .95 (Anxiety –fathers) at T2.

Table 1 | Sample socio-demographic and clinical characteristics

Demographics			
	Mothers (<i>n</i> = 43)	Fathers (<i>n</i> = 36)	
	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>M</i> (<i>SD</i>)	<i>t</i>
<i>Age</i>	31.58 (4.95)	33.25 (5.05)	-1.48
<i>Educational level (years)</i>	14.07 (3.53)	12.11 (2.73)	2.69**
	<i>n</i> (%)	<i>n</i> (%)	χ^2
<i>Marital status</i>			
Married/Living together	40 (93.0)	34 (94.4)	0.20
Single/Divorced	3 (7.0)	2 (5.6)	
<i>Professional status</i>			
Employed	35 (81.4)	33 (91.7)	1.73
Unemployed	8 (18.6)	3 (8.3)	
Obstetric history			
	Mothers (<i>n</i> = 43)		
	<i>n</i> (%)		
<i>Parity</i>			
Primiparity		22 (51.2)	
Multiparity		21 (48.8)	
<i>History of pregnancy loss</i>			
Yes		8 (18.6)	
No		35 (81.4)	
CA characteristics			
	Infant's data (<i>n</i> = 43)		
	<i>n</i> (%)		
<i>Timing of diagnosis</i>			
Prenatal		26 (60.5)	
Postnatal		17 (39.5)	
<i>Type of congenital anomaly</i>			
Congenital heart disease		16 (37.2)	
Nervous system anomalies		5 (11.6)	
Digestive system anomalies		4 (9.3)	
Urinary system anomalies		11 (25.6)	
Oro-facial clefts		4 (9.3)	
Limb anomalies		3 (7.0)	
<i>Hospitalization</i>			
Yes		19 (44.2)	
No		24 (55.8)	
<i>Need for surgery</i>			
Yes		13 (30.2)	
No		30 (69.8)	

***p* < .01.

QoL was assessed with the Portuguese version of the World Health Organisation Quality of Life brief instrument (WHOQOL-Bref; Vaz-Serra et al., 2006), which consists of 26 items (answered on a 5-point Likert scale) organised into a facet of Overall QoL and four specific domains: Physical, Psychological, Social Relationships, and Environment. Higher scores indicate

better QoL. In our study, the Overall facet of QoL and the Environmental domain were not used because they presented low Cronbach's alphas ($< .60$) at one assessment time or more. In the remaining dimensions, Cronbach's alphas ranged from .61 (Social Relationships –mothers) to .82 (Psychological –fathers) at T1 and .61 (Physical –fathers) to .89 (Physical –mothers) at T2.

Sociodemographic (gender, age, marital status, educational level, and professional status) and clinical information (parity and history of pregnancy loss; the infant's data, including gender, gestational age at birth, type of CA, timing of diagnosis, hospitalization, and need for surgery) were collected.

Data Analyses

Analyses were conducted with IBM SPSS, version 19.0. Descriptive statistics were used to describe sample characteristics and parental adjustment. Chi-squared tests and *t*-tests were used to compare maternal and paternal sociodemographic characteristics.

To assess the effects of time, timing of diagnosis, and gender in psychological distress and QoL, repeated-measures MANOVAs were used, followed by univariate ANOVAs when the multivariate effect was significant. Gender differences were examined as a within-subjects factor within the couple.

To identify patterns of individual adjustment over time, parents were classified at both assessment times according to their scores on individual adjustment, using agglomerative hierarchical cluster analyses. The cluster variables (psychological distress and QoL) were standardised to Z-scores to equalise the contribution of each variable in the cluster analysis. Squared Euclidean distance was used to measure the distance between individual observations on the clustering variables and Ward's method of minimum variance was used to form the clusters. The number of clusters at each assessment time was selected based on the rescaled distances evident in the hierarchical cluster dendograms and the percentage change in agglomeration coefficients at each step of the cluster analysis (Hair & Black, 2000). MANOVAs were performed to characterize the clusters and the frequency of parents in each cluster was reported. Continuity and change over time in cluster membership was examined using McNemar's test. Chi-squared tests were used to examine differences in individual patterns of adjustment over time as a function of gender and timing of diagnosis.

Significance was defined as $p < .05$, but marginally significant ($p < .10$) effects are also reported. Post-hoc power calculations for the comparison analyses performed with a significance level of .10 and power $\geq .80$ indicated that large effects ($f \geq .33$) could be detected (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007). Effect-size measures are presented for all comparison analyses (small: $\eta^2 \geq .01$; medium: $\eta^2 \geq .06$; large: $\eta^2 = .14$).

Results

Parental adjustment: Effects of time, timing of diagnosis, and gender

Table 2 presents multivariate and significant univariate analyses of the main and interaction effects of time, timing of diagnosis, and gender. Figure 1 presents mean scores for parents' psychological distress and QoL at T1 and T2.

Time

A marginally significant multivariate main effect of time was found for psychological distress and a significant effect was found for QoL. Univariate tests showed a significant decrease in Anxiety and Depression and a significant increase in Physical QoL (see Table 2 and Figure 1).

Timing of diagnosis

No significant multivariate main effects or interaction effects with time were found for psychological distress or QoL (see Table 2). Parents showed similar levels of adjustment and a similar pattern of change from T1 to T2, regardless of timing of diagnosis.

The timing of diagnosis x gender interaction was not significant for psychological distress, but it was significant for QoL, specifically in Social Relationships QoL (see Table 2). Post-hoc analyses showed gender differences at T1 for parents in the postnatal diagnosis group, with mothers ($M = 81.67$, $SD = 14.84$) presenting higher Social Relationships QoL than their partners ($M = 72.78$, $SD = 17.10$; $Z = -2.31$, $p = .021$). No gender differences were found in the prenatal diagnosis group or in either group at T2.

Gender

The multivariate main effect of gender was significant for psychological distress. Mothers presented higher Anxiety and Depression than fathers over time (see Table 2). Gender comparisons at each time-point showed that at T1 mothers presented higher Anxiety ($F = 4.37$, $p = .044$, $\eta^2 = .11$) and Depression ($F = 4.81$, $p = .035$, $\eta^2 = .12$) than fathers, although at T2 they presented higher Anxiety ($F = 5.61$, $p = .024$, $\eta^2 = .14$), but not Depression ($F = 2.77$, $p = .105$, $\eta^2 = .07$), than fathers.

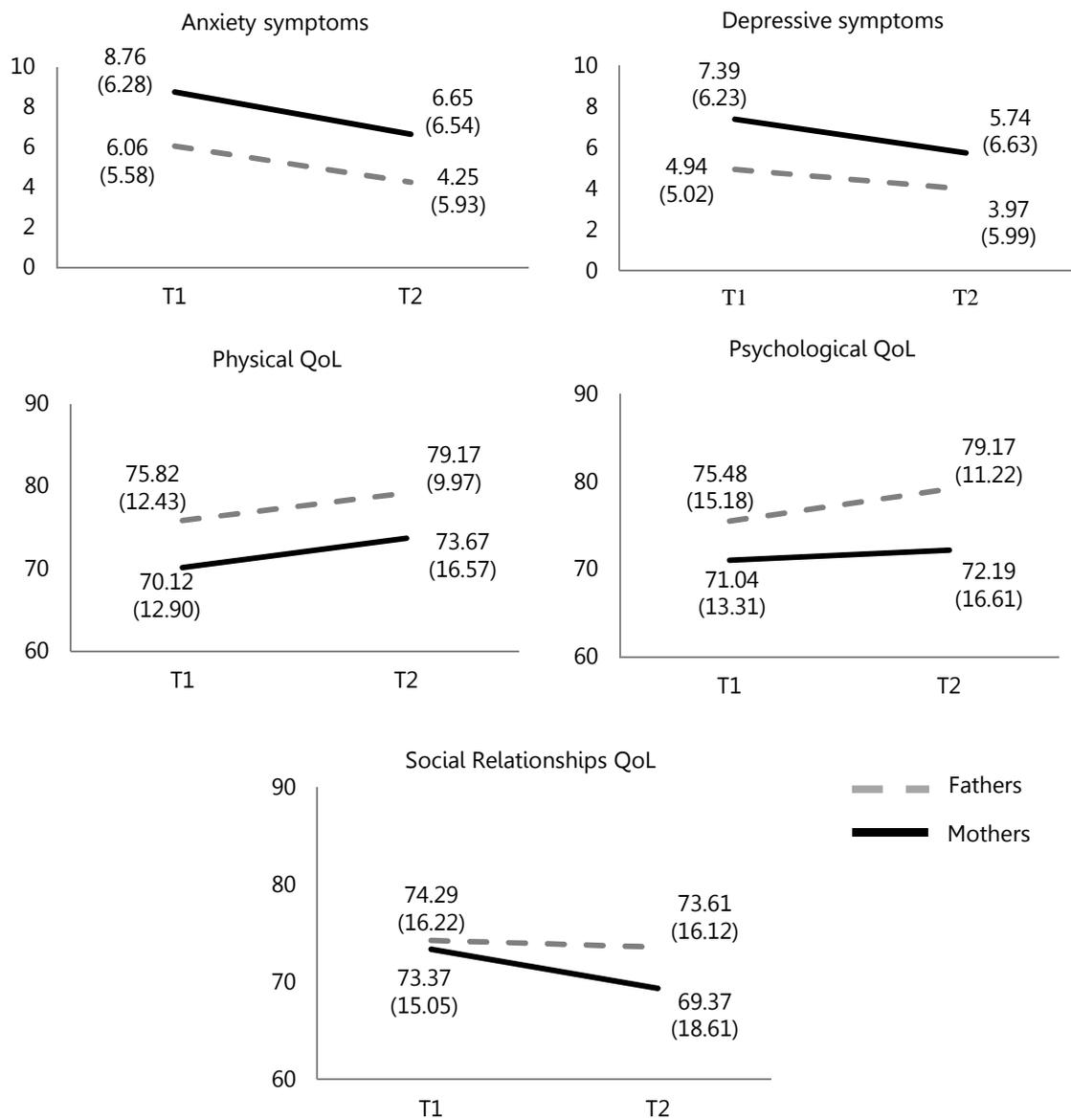


Figure 1 | Parental psychological distress and quality of life at diagnosis (T1) and six months after the infant's birth (T2)

The multivariate main gender effect for QoL was also significant, with mothers presenting lower Physical and Psychological QoL than fathers (see Table 2). Specifically, mothers presented lower Physical QoL than fathers at T1 ($F = 7.05, p = .012, \eta^2 = .17$) and lower Psychological QoL than fathers at T2 ($F = 5.82, p = .021, \eta^2 = .14$). Finally, none of the multivariate gender x time interactions was significant (see Table 2).

Table 2 | Main and interaction effects of time, timing of diagnosis, and gender in psychological distress and quality of life: Multivariate and univariate effects

	Time		Timing of diagnosis		Gender		Time x Timing of diagnosis		Time x Gender		Timing of diagnosis x Gender	
Psychological distress												
<i>Multivariate</i>	PT = .16		PT = .01		PT = .17		PT = .01		PT = .02		PT = .02	
	$F_{2,33} = 3.05^+$		$F_{2,33} = 0.20$		$F_{2,33} = 3.35^*$		$F_{2,33} = 0.23$		$F_{2,33} = 0.38$		$F_{2,33} = 0.28$	
<i>Univariate</i>	$\eta^2 = .16$		$\eta^2 = .12$		$\eta^2 = .17$		$\eta^2 = .01$		$\eta^2 = .02$		$\eta^2 = .02$	
	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2
Anxiety	5.86*	.15			6.07*	.15						
Depression	2.94*	.08			6.27*	.15						
Quality of Life												
<i>Multivariate</i>	PT = .38		PT = .12		PT = .29		PT = .04		PT = .16		PT = .32	
	$F_{3,32} = 6.39^{**}$		$F_{3,32} = 1.44$		$F_{3,32} = 4.25^*$		$F_{3,32} = 0.47$		$F_{3,32} = 2.01$		$F_{3,32} = 5.07^{**}$	
<i>Univariate</i>	$\eta^2 = .38$		$\eta^2 = .12$		$\eta^2 = .29$		$\eta^2 = .04$		$\eta^2 = .16$		$\eta^2 = .32$	
	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2	<i>F</i>	η^2
Physical	9.22**	.21			5.60*	.14					0.76	.02
Psychological	2.17	.06			5.82*	.15					0.65	.02
Soc. Relat.	2.67	.07			0.01	.09					4.76*	.12

Note. PT = Pillai's Trace.

+ $p < .10$. * $p < .05$. ** $p < .01$.

Individual patterns of adjustment: Continuity and change over time

A two-cluster solution provided the best fit for the data at T1 and T2. Participants belonging to Cluster 1 had significantly higher levels of psychological distress (T1: Pillai's Trace = .26, $F_{2,73} = 12.95$, $p < .001$, $\eta^2 = .26$; T2: Pillai's Trace = .73, $F_{2,76} = 101.70$, $p < .001$, $\eta^2 = .73$) and significantly lower QoL (T1: Pillai's Trace = .58, $F_{3,72} = 33.59$, $p < .001$, $\eta^2 = .58$; T2: Pillai's Trace = .26, $F_{3,75} = 8.60$, $p < .001$, $\eta^2 = .26$) than participants in Cluster 2. According to their characteristics, Cluster 1 was labelled "Worse adjustment" and Cluster 2 was labelled "Better adjustment".

Table 3 | Parents in each cluster of adjustment at diagnosis (T1) and six months after the infant's birth (T2)

		Adjustment six months after birth (T2)		
		Worse adjustment <i>n</i> (%)	Better adjustment <i>n</i> (%)	
Total T2			13 (16.5%)	66 (83.5%)
Adjustment at diagnosis (T1)	Worse adjustment <i>n</i> (%)	57 (72.2%)	12 (15.2%)	45 (57.0%)
	Better adjustment <i>n</i> (%)	22 (27.8%)	1 (1.3%)	21 (26.5%)

Table 3 presents the cluster membership of the parents at each time-point. At T1, most parents were assigned to the "Worse adjustment" cluster, whereas most of the parents were assigned to the "Better adjustment" cluster at T2. The majority of participants changed cluster membership between T1 and T2 (McNemar's test for mothers: $p < .001$; fathers: $p < .001$). In fact, the majority (57.0%) of parents presented a pattern of recovery, and only one parent showed more distress at T2 than T1. With regard to continuity, 26.6% of parents presented a pattern of good adjustment over time (resiliency) and 15.2% of parents showed a pattern of chronic distress (see Table 3). No significant differences were found in the frequencies of the different adjustment patterns over time as a function of timing of diagnosis ($\chi^2_3 = 1.32$, $p = .725$) or gender ($\chi^2_3 = 5.70$, $p = .127$).

Discussion

The present study showed that, despite the initial impact of the diagnosis, most parents of an infant with a CA adapt to the condition, as shown by the improvement in their adjustment six months after the infant's birth. From the early post-diagnosis stage to six months post-birth, both

mothers and fathers experienced a significant reduction in depression and anxiety symptoms, as well as a significant increase in Physical QoL (e.g., more energy, less fatigue, higher working capacity), supporting our first hypothesis. Similar results were found when considering individual patterns of adjustment: most of the parents showed a pattern of recovery over time. After the initial disruption following the disclosure of the diagnosis, parents usually seek more information about the CA and possible treatment plans (Aite et al., 2006), which reduces uncertainty and consequently improves parents' adjustment (Lipinski et al., 2006). Moreover, the parents' ability to readjust their expectations about the future, and the positive feelings associated with the infant's birth and parent-child interaction may alleviate the impact of the caregiving demands associated with the CA on parents' adjustment.

Furthermore, 26.6% of parents were found to present a resilient pattern, that is the ability to maintain a good adjustment over time. These parents may be able to activate the internal and external resources needed to deal with their infant's CA, perceiving the situation as less disrupting and demanding (Boss, 2002). However, approximately 15% of parents presented chronic adjustment difficulties; they may have more difficulty in activating the resources to deal with the situation, or perceive it as very demanding (Boss, 2002). Moreover, there may be prior vulnerability factors compromising those parents' ability to adapt to their infant's CA. Future studies should explore which characteristics (e.g., individual characteristics, such as personal resources and perceptions) discriminate parents presenting different patterns of adjustment over time, to identify those who may present more adjustment difficulties as early as possible.

Our results did not confirm our second hypothesis, suggesting instead that the process of parental adjustment to their infant's CA is similar regardless of the timing of diagnosis. Although parents whose infant has been prenatally diagnosed with a CA may experience uncertainty until the infant's birth (Brosig et al., 2007), they may also perceive this period as a time to prepare themselves to meet the infant's specific needs after birth (Nusbaum et al., 2008). Further studies should explore this hypothesis.

Our third hypothesis was partially confirmed. Our results showed that mothers presented more adjustment difficulties than fathers over time, but the individual adjustment trajectories were similar. Specifically, mothers presented higher Anxiety and Depression and lower Physical QoL than fathers at the early post-diagnosis stage, suggesting a greater impact of the diagnosis (Fonseca et al., 2012). Nevertheless, these gender differences also occur in the general population – due to physical changes resulting from the pregnancy and childbirth processes, and to the greater centrality of the parental role in mothers' lives (e.g., Jomeen, 2004; Woollett & Parr, 1997) – and therefore may not be exclusively related to the impact of the diagnosis. However, mothers reported higher Social Relationships QoL than their partners only when the diagnosis occurred postnatally. One possible explanation is that in the post-birth period, parents tend to become closer to their nuclear family (Bost et al., 2002) and more distant from their extended social network; therefore, mothers (who usually benefit from maternity leave) may feel more protected

from communication difficulties associated with the CA when the diagnosis is postnatal than when it is prenatal, leading to a greater perception of well-being in this life domain.

At six months post-birth, mothers still exhibited more adjustment difficulties than fathers (higher Anxiety and lower Psychological QoL) related to their role as primary caregivers (Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999). However, those differences tended to attenuate over time (no differences were found in Depression and Physical QoL). Mothers may have recovered from the physical changes of pregnancy and childbirth and may have managed to adapt to the new routines of caring for their infant, who also becomes increasingly less dependent on the exclusive maternal care; this may lead to a greater similarity between maternal and paternal experiences (Pelchat, Lefebvre, & Perreault, 2003).

This study is an important contribution to the field for four reasons: a) it prospectively evaluates parental adjustment to an infant's CA; b) it considers psychological distress and QoL (a broader dimension of well-being) as adjustment indicators; c) it includes mothers and fathers; and d) it focuses on parents' adjustment to their infant's CA as a group, but also individually. However, this study also has limitations: a) the study's low power to detect small effects due to the sample size, and b) the non-categorical approach to CA (inclusion of different types of CA), which did not allow us to explore the influence of specific features and the severity of different CAs in parental adjustment.

Finally, the findings of the present study lead to several clinical implications. First, health professionals should recognise the heterogeneity of individual patterns of parental adjustment to their infant's CA, and use that knowledge to anticipate parents' reactions and needs at different times. Although mothers presented more adjustment difficulties, especially at diagnosis, health professionals should be aware of the adjustment process of mothers and fathers, and assessment and intervention should include the participation of both parents whenever possible. A comprehensive parental assessment, focusing not only on their adjustment indicators but also on their appraisal of the situation and available resources (Boss, 2002), is essential to identify parents with a higher likelihood of developing chronic distress. Second, all parents may benefit from psychoeducation regarding the heterogeneity of individual trajectories in response to stressful events, which may help them normalise their reactions and self-identify indicators of adjustment difficulties. Finally, parents who present chronic adjustment difficulties should be targeted for specialised counselling.

References

- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Zaccara, A., La Sala, E., & Bagolan, P. (2003). Antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies: Effects of repeated consultations on parental anxiety. *Journal of Perinatology*, *23*, 652-654. doi: 10.1002/imhj.10075

- Aite, L., Zaccara, A., Nahom, A., Trucchi, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Mothers' adaptation to antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies. *Early Human Development, 82*, 649-653. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2005.12.010
- Aite, L., Zaccara, A., Trucchi, A., Nahom, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Parents' informational needs at the birth of a baby with a surgically correctable anomaly. *Pediatric Surgery International, 22*, 267-270. doi: 10.1007/s00383-005-1631-2
- Bonanno, G. (2004). Loss, trauma, and human resilience: Have we underestimated the human capacity to thrive after extremely aversive events? *American Psychologist, 59*, 20-28. doi: 10.1037/0003-066x.59.1.20
- Bonanno, G. (2005). Resilience in the face of potential trauma. *Current Directions in Psychological Science, 14*, 135-138. doi: 10.1111/j.0963-7214.2005.00347.x
- Boss, P. (2002). *Family stress management: A contextual approach* (2nd ed.). London: SAGE.
- Bost, K., Cox, M., Burchinal, M., & Payne, C. (2002). Structural and supportive changes in couples' family and friendship networks across the transition to parenthood. *Journal of Marriage and Family, 64*(2), 517-531. doi: 10.1111/j.1741-3737.2002.00517.x
- Brosig, C. L., Whitstone, B. N., Frommelt, M. A., Frisbee, S. J., & Leuthner, S. R. (2007). Psychological distress in parents of children with severe congenital heart disease: The impact of prenatal versus postnatal diagnosis. *Journal of Perinatology, 27*, 687-692. doi: 10.1038/sj.jp.7211807
- Crowley, L. (2010). *An introduction to human disease: Pathology and pathophysiology correlations* (8th ed.). Sudbury: Jones and Bartlett Publishers, LLC.
- Dale, M., Solberg, O., Holmstrom, H., Landolt, M., Eskedal, L., & Vollrath, M. (2012). Mothers of infants with congenital heart defects: Well-being from pregnancy through the child's first six months. *Quality of life research, 21*(1), 115-122. doi: 10.1007/s11136-011-9920-9
- Derogatis, L. R. (2000). *The Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18): Administration, scoring and procedures manual*. Minneapolis: National Computer Systems.
- deRoon-Cassini, T., Mancini, A., Rusch, M., & Bonanno, G. (2010). Psychopathology and resilience following traumatic injury: A latent growth mixture model analysis. *Rehabilitation Psychology, 55*(1), 1-11. doi: 10.1073/a0018601
- Drotar, D., Baskiewicz, A., Irvin, N., Kennell, J., & Klaus, M. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: A hypothetical model. *Pediatrics, 56*(5), 710-717.
- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2009). *EUROCAT guide 1.3 and reference documents: Instructions for the registration and surveillance of congenital anomalies*. Newtonabby: EUROCAT Central Registry.
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A. G., & Buchner, A. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods, 39*, 175-191.

- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2012). Parental psychological distress and quality of life after a prenatal or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy infants. *Disability and Health Journal*, *5*, 67-74. doi: 10.1016/j.dhjo.2011.11.001
- Gameiro, S., Carona, C., Silva, S., & Canavarro, M. C. (2010). Qualidade de vida e depressão: Um estudo comparativo com doentes com diagnóstico clínico de depressão major, utentes de centros de saúde e indivíduos da população geral [Quality of life and depression: A comparative study with patients with major depression, patients from primary care units, and individuals from the general population]. In M. C. Canavarro, & A. Vaz-Serra (Eds.), *Qualidade de vida e saúde: Uma abordagem na perspectiva da Organização Mundial de Saúde* (pp. 299-324). Lisboa: Fundação Calouste Gulbenkian.
- Hair, J. F., & Black, W. C. (2000). Cluster analysis. In L. Grimm, & P. R. Yarnold (Eds.), *Reading and understanding more multivariate statistics* (pp. 147-205). Washington, D.C.: American Psychological Association.
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology*, *24*(6), 515-520. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Jomeen, J. (2004). The importance of assessing psychological status during pregnancy, childbirth and the postnatal period as a multidimensional construct: A literature review. *Clinical Effectiveness in Nursing*, *8*, 143-155. doi: 10.1016/j.cein.2005.02.001
- Kaasen, A., Helbig, A., Malt, U., Naes, T., Skari, H., & Haugen, G. (2010). Acute maternal social dysfunction, health perception and psychological distress after ultrasonographic detection of a fetal structural anomaly. *British Journal of Obstetrics and Gynecology*, *117*, 1127-1138. doi: 10.1111/j.1471-0528.2010.02622.x
- Lipinski, S., Lipinski, M., Biesecker, L., & Biesecker, B. (2006). Uncertainty and perceived personal control among parents of children with rare chromosome conditions: The role of genetic counseling. *American Journal of Medical Genetics Part C (Seminars in Medical Genetics)*, *142C*, 232-240. doi: 10.1002/ajmg.c
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M. v., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *6*(102), 102-110. doi: 10.1186/1477-7525-6-102. doi: 10.1186/1477-7525-6-102
- Messias, D., Gilliss, C., Sparacino, P., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine*, *13*(3/4), 367-377. doi: 10.1037/h0089280
- Nusbaum, R., Grubs, R., Losee, J., Weidman, C., Ford, M., & Marazita, M. (2008). A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *Journal of Genetic Counseling*, *17*, 336-350. doi: 10.1007/s10897-008-9152-5

- Pelchat, D., Lefebvre, H., & Perreault, M. (2003). Differences and similarities between mothers' and fathers' experiences of parenting a child with a disability. *Journal of Child Health Care*, 7(4), 231-247. doi: 10.1177/12674935030074001
- Pinelli, J., Saigal, S., Wu, Y. W., Cunningham, C., DiCenso, A., Steele, S., . . . Turner, S. (2008). Patterns of change in family functioning, resources, coping and parental depression in mothers and fathers of sick newborns over the first year of life. *Journal of Neonatal Nursing*, 14, 156-165. doi: 10.1016/j.jnn.2008.03.015
- Skari, H., Malt, U., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, M., . . . Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis*, 26, 1001-1009. doi: 10.1002/pd.1542
- The WHOQOL Group. (1994) Development of the WHOQOL: Rationale and current status. *International Journal of Mental Health* 23(3): 24-56.
- Vaz-Serra, A., Canavarro, M. C., Simões, M. R., Pereira, M., Gameiro, S., Quartilho, M., . . . Paredes, T. (2006). Estudos psicométricos do instrumento de avaliação da qualidade de vida da Organização Mundial de Saúde (WHOQOL-Bref) para português de Portugal. *Psiquiatria Clínica*, 27(1), 41-49.
- Woollett, A., & Parr, M. (1997). Psychological tasks for women and men in the post-partum. *Journal of Reproductive and Infant Psychology*, 15(2), 159-183. doi: 10.1080/02646839708404541



Capítulo 4

Síntese e Discussão dos Resultados

No capítulo final deste trabalho, retomamos o objetivo geral da investigação – *conhecer a (in)adaptação dos pais à gravidez e ao nascimento de um filho, quando ocorreu um diagnóstico pré ou pós-natal de AC* – para, a partir dele, refletirmos acerca dos principais resultados e do seu significado. Apoiando-nos na abordagem desenvolvimental e ecológica que orientou todo este trabalho (Cicchetti, 2006; Sroufe, 1997), e no contributo específico dos modelos de stress familiar (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983) para a compreensão do processo de (in)adaptação dos pais à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé, começaremos por fazer uma breve síntese e discussão integrada dos principais resultados¹⁸ obtidos nos diferentes estudos empíricos. De seguida, refletiremos acerca dos pontos fortes e limitações da investigação, tentando, sempre que possível, apontar caminhos para investigações futuras. Por último, daremos particular destaque às implicações dos resultados para a prática clínica.

1. Síntese e discussão integrada dos resultados

Nos seis estudos empíricos que conduzimos, obtivemos resultados caracterizadores das reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC (Estudos Empíricos I e II) e da sua adaptação individual (Estudos Empíricos III, IV e VI) e parental (Estudos Empíricos IV e V), desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé. Estes resultados procuraram dar resposta aos dois primeiros objetivos específicos deste trabalho. Além disso, dando resposta ao terceiro objetivo específico da investigação, obtivemos resultados que nos informam acerca da influência das variáveis clínicas (Estudo Empírico II) na resposta inicial da família à ocorrência do diagnóstico de AC, bem como do papel dos recursos da família (representações de vinculação e apoio social) na adaptação individual e parental, durante os primeiros meses de vida de um bebé com AC (Estudos Empíricos IV e V). De entre os resultados encontrados, consideramos importante destacar os seguintes:

- i. Foram identificados **dois padrões de resposta emocional dos pais** à notícia do diagnóstico de AC: um caracterizado por reações emocionais negativas de elevada intensidade, semelhante ao padrão de reações agudas de luto comumente descrito na literatura, e um outro padrão caracterizado por reações emocionais negativas menos

¹⁸ De referir que, em cada estudo empírico, os resultados foram discutidos detalhadamente, em secção própria, pelo que não é nosso objetivo repetir aqui a discussão pormenorizada de todos os resultados encontrados.

- intensas. Estes padrões de resposta emocional são semelhantes para ambos os gêneros e independentes do tipo de AC e do *timing* do diagnóstico (pré vs. pós-natal).
- ii. Para além das reações emocionais negativas, destaca-se a elevada frequência e intensidade com que os pais reportaram sentir **esperança**, após a comunicação da notícia do diagnóstico de AC.
 - iii. As **características da AC** (isto é, do acontecimento indutor de *stress*) que contribuíram para reações emocionais negativas mais intensas à notícia do diagnóstico foram o grau de incerteza a ele associado, a inexistência de conhecimento prévio acerca da AC (apenas para os pais) e a inexistência de experiências reprodutivas prévias negativas (apenas para as mães).
 - iv. Na **fase pós-diagnóstico**, os pais de bebês com AC apresentaram, por comparação aos pais de bebês saudáveis no mesmo período desenvolvimental, níveis superiores de sintomatologia psicopatológica (ansiosa e depressiva), mas não se distinguiram na percepção de qualidade de vida. Ao longo do tempo, assistimos a uma **melhoria da adaptação individual dos pais de bebês com AC**: verificou-se uma redução significativa dos níveis de sintomatologia psicopatológica e uma melhoria da percepção de qualidade de vida física. De forma geral, estes resultados não variaram em função do *timing* do diagnóstico. A análise dos padrões individuais de (in)adaptação demonstrou que a maioria dos pais apresentou uma trajetória de *recuperação* (57%) ou *resiliente* (26,6%), apesar de uma proporção de pais (15,2%) ter apresentado *dificuldades continuadas de adaptação*.
 - v. Foram encontradas **diferenças de género** na adaptação individual ao diagnóstico de AC no bebê: as mães apresentaram mais **dificuldades de adaptação** na fase pós-diagnóstico (mais sintomatologia psicopatológica e pior qualidade de vida física e psicológica) e seis meses após o nascimento do bebê (mais sintomatologia ansiosa e pior qualidade de vida psicológica); no entanto, no que respeita às trajetórias individuais de (in)adaptação, não foram encontradas diferenças de género.
 - vi. No que respeita à **adaptação parental**, verificou-se que as mães de bebês com AC apresentaram, um mês após o nascimento do bebê, menor confiança parental do que as mães de bebês saudáveis; por oposição, os pais de bebês com AC apresentaram níveis superiores de confiança parental, quando comparados com pais de bebês saudáveis. Cerca de **seis meses após o nascimento de um bebê com AC**, verificou-se que mães e pais apresentaram níveis semelhantes de *stress* parental e de sobrecarga associada à prestação de cuidados.
 - vii. As **representações de vinculação** e o **apoio social** constituem dois recursos que influenciam a adaptação individual e parental de pais de bebês com AC; o padrão de influência desses recursos é diferente em função do género dos pais.

A resposta inicial da família: a variabilidade das reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico e a adaptação na fase pós-diagnóstico

Corroborando uma abordagem não-determinista da (in)adaptação (Cicchetti, 2006), os nossos resultados apontam para a existência de **dois padrões distintos de resposta emocional à notícia do diagnóstico de AC no bebê**; se o primeiro corresponde ao padrão de reações negativas de luto comumente descrito na literatura (Statham et al., 2000), o outro padrão caracteriza-se por reações emocionais negativas de baixa intensidade, especialmente nas emoções choque, raiva e desespero, o que parece sugerir menor interrupção emocional. Esta diversidade tem implicações a dois níveis.

Por um lado, a montante, no reconhecimento de que a variabilidade na resposta emocional dos pais tem subjacente a influência de diferentes fatores. No Estudo Empírico II, verificámos que as reações emocionais dos pais são influenciadas por variáveis clínicas, especificamente aquelas que contribuem para a definição do acontecimento indutor de *stress* em termos do grau em que este é inesperado (e.g., inexistência de conhecimento prévio acerca da AC; ausência de experiências reprodutivas prévias negativas) e imprevisível/ambíguo (e.g., grau de incerteza associado ao diagnóstico de AC). Como salienta Boss (2002), acontecimentos mais inesperados e ambíguos aumentam a probabilidade de uma resposta de *stress* familiar mais intensa ou mesmo de crise familiar. De forma congruente, é possível que o grau em que o significado atribuído ao diagnóstico de AC abala as representações prévias acerca do bebê (e.g., 'perda do bebê perfeito e saudável'; Jones et al., 2005) influencie a resposta emocional dos pais à notícia do diagnóstico. O papel desta e de outras variáveis (e.g., crenças familiares acerca de saúde e doença, recursos pessoais) deve ser objeto de investigações futuras.

Por outro lado, a diversidade da resposta emocional dos pais tem implicações a jusante, no reconhecimento de que podem existir diferenças ao nível da compreensão da informação acerca da AC. Por exemplo, reações emocionais mais intensas estão associadas a maior dificuldade na retenção e compreensão da informação sobre a AC (Aite et al., 2004), o que, conseqüentemente, pode afetar os processos de tomada de decisão e a forma como os pais lidam com as exigências associadas ao diagnóstico (Abramsky, Hall, Levitan, & Marteau, 2001; Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006). Tal como verificámos no Estudo Empírico I, o padrão de reações emocionais negativas mais intensas mostrou estar associado a níveis de sintomatologia psicopatológica mais elevados, apenas para os pais, cerca de um mês após a notícia do diagnóstico de AC. Num outro estudo, verificámos ainda que este padrão estaria associado a níveis de sintomatologia psicopatológica maternos e paternos mais elevados, seis meses após o nascimento do bebê (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2011c), o que sublinha o valor preditivo das reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC para a sua (in)adaptação futura. Daqui decorrem também implicações para a atuação dos profissionais de saúde, que discutiremos pormenorizadamente no último ponto deste capítulo.

De forma congruente com outros estudos (e.g., Doherty et al., 2009; Kaasen et al., 2010; Kemp et al., 1998), **o diagnóstico de AC no bebê mostrou ter um impacto significativo na adaptação dos pais**, que se manifesta sobretudo nos níveis mais elevados de sintomatologia ansiosa e depressiva, por comparação a pais de bebês saudáveis. As reações emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de AC e as manifestações de ansiedade e depressão na fase pós-diagnóstico constituem, à luz do modelo ABC-X Duplo (McCubbin & Patterson, 1983), a resposta inicial da família ao diagnóstico de AC.

Perante a ocorrência do diagnóstico de AC no bebê, muitos casais não têm, na sua história individual ou familiar, experiências semelhantes que se constituam como um referencial para lidar com a situação, isto é, que lhes permitam identificar as estratégias/recursos necessários (Rolland, 1999), o que pode acentuar as suas manifestações de sintomatologia psicopatológica. Para além disso, na fase pós-diagnóstico, a família tem de processar um conjunto de informação complexa sobre a AC (Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006) e adequar as suas expectativas relativamente ao futuro próximo (e.g., planificação do parto; necessidade de cirurgia pós-natal ou de internamento na UCIN), sendo previsível a ocorrência de perturbação emocional. Por exemplo, num outro estudo conduzido por nós, verificámos que as mães que perceberam ter compreendido menos a informação sobre a AC reportaram níveis mais elevados de sintomatologia psicopatológica na fase pós-diagnóstico (Fonseca, Nazaré, & Canavaro, 2011b). Por último, a família tem ainda de lidar com as exigências e reorganizações características da transição para a parentalidade (Messias et al., 1995); todos estes aspetos implicam mudanças no funcionamento do sistema familiar, que parecem traduzir-se na perturbação do bem-estar dos membros da família (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983), ou seja, em níveis acrescidos de sintomatologia ansiosa e depressiva.

A resposta de adaptação da família: os percursos de (in)adaptação dos pais de bebês com anomalia congênita

Os resultados da nossa investigação apontam para uma **melhoria global da adaptação individual dos pais de bebês com AC**, desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebê, caracterizada pela redução dos níveis de sintomatologia psicopatológica e pela perceção de melhoria na qualidade de vida física (e.g., menor fadiga, maior capacidade de realizar atividades quotidianas). Estes resultados são, de forma geral, consistentes com o escasso conhecimento atual sobre o tópico (Brosig et al., 2007; Pinelli et al., 2008). De forma similar, a maioria dos pais (57%) apresenta um padrão individual de *recuperação* da adaptação ao longo do tempo.

Após a perturbação emocional na fase pós-diagnóstico, é possível que a interação entre os recursos da família para lidar com as exigências do diagnóstico e o significado atribuído à situação conduzam, na maioria dos casos, a um processo de adaptação da família ao diagnóstico de AC, que se caracteriza por um novo equilíbrio da família e se manifesta no bem-estar dos seus membros (McCubbin & Patterson, 1983). Adicionalmente, com o nascimento do bebé, vários fatores parecem confluír para a melhoria da adaptação da maioria dos pais, nomeadamente a existência de informação adicional sobre a AC e a planificação mais clara do tratamento (e.g., cirurgia, medicação, monitorização médica), que permite aos pais restituir a perceção de controlo abalada com o diagnóstico de AC (Lipinski, Lipinski, Biesecker, & Biesecker, 2006) e a oportunidade de os pais se focarem noutras características da criança, para além do diagnóstico de AC, bem como em interações pais-criança gratificantes.

Apesar de a maioria dos pais apresentar uma trajetória individual caracterizada pela *recuperação*, outros dois percursos de (in)adaptação merecem a nossa atenção: cerca de 26,6% dos pais revelaram a capacidade de manutenção de um funcionamento individual mais adaptativo desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé (padrão de *resiliência*) e 15,2% dos pais apresentaram um padrão caracterizado por *dificuldades continuadas de adaptação*. Do nosso conhecimento, este foi o primeiro estudo empírico a investigar esta questão, ainda que de forma exploratória, numa amostra de pais de bebés com AC; no entanto, resultados semelhantes no que respeita à prevalência dos diferentes padrões ou trajetórias de (in)adaptação foram encontrados em estudos com indivíduos expostos a outros acontecimentos indutores de *stress* (Bonanno, 2004; Bonanno, 2005; deRoon-Cassini, Mancini, Rusch, & Bonanno, 2010).

Por um lado, seguindo a conceptualização de Bonanno e colaboradores (Bonanno, 2004; deRoon-Cassini et al., 2010), os indivíduos que apresentam um padrão de *resiliência* caracterizam-se pela capacidade de manutenção de um equilíbrio estável e de um funcionamento físico e psicológico saudável, apesar da exposição a um acontecimento adverso, neste caso, o diagnóstico de AC. O conceito de resiliência é um conceito particularmente caro à abordagem desenvolvimental e ecológica que orienta este trabalho (Luthar & Cicchetti, 2000), nomeadamente no que respeita ao interesse em conhecer os fatores e mecanismos protetores que estão relacionados com a capacidade de manter uma adaptação positiva, apesar da ocorrência da experiência adversa (Cicchetti, 2006; Luthar & Cicchetti, 2000). Para além disso, quer o padrão de *resiliência*, quer o padrão de *recuperação*, corroboram o abandono das perspetivas mais deterministas e patológicas acerca da inevitabilidade do impacto negativo da ocorrência do diagnóstico de AC para a família.

Por outro lado, uma proporção de pais de bebés com AC apresentou *dificuldades continuadas de adaptação* ao longo do tempo (trajetória mais inadaptativa); estes resultados são similares aos de dois estudos qualitativos que demonstraram que, após o diagnóstico de AC no bebé, uma proporção minoritária de pais não conseguiu atingir um estágio de adaptação, caracterizado por reduzida perturbação emocional e pela capacidade de uma interação positiva e

gratificante com a criança (Aite, Zaccara, Nahom, et al., 2006; Drotar et al., 1975). À luz dos modelos de *stress* familiar, é possível hipotetizar que estes pais não tenham conseguido mobilizar os recursos necessários para lidar com o diagnóstico e/ou tenham avaliado a situação como demasiado exigente (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983). É ainda possível que os pais que apresentam esta trajetória mais inadaptativa possuam fatores de vulnerabilidade prévios que condicionem a trajetória atual; por exemplo, verificámos que a história de psicopatologia prévia se revelou, para as mães, um preditor significativo de níveis superiores de ansiedade e de níveis inferiores de qualidade de vida psicológica na fase pós-diagnóstico (Fonseca, Nazaré, & Canavarro, 2011a). As *dificuldades continuadas de adaptação* dos pais podem comprometer não só a sua adaptação individual futura (Cicchetti, 1993, 2006), como também a sua interação com a criança (Leigh & Milgrom, 2008; Milgrom, Ericksen, McCarthy, & Gemmill, 2006), pelo que estes pais poderão beneficiar de intervenção psicológica estruturada, como discutiremos no último ponto deste capítulo.

A presença de indicadores positivos de adaptação: que significado?

Apesar da perturbação inicial da adaptação dos pais (reações emocionais negativas e sintomatologia psicopatológica na fase pós-diagnóstico), provocada pela ocorrência do diagnóstico de AC no bebé, os pais apresentam também indicadores positivos de adaptação nesta fase (elevada frequência e intensidade com que reportaram sentir esperança no momento da notícia do diagnóstico de AC; níveis de qualidade de vida semelhantes aos de pais de bebés saudáveis). Além disso, ao longo do tempo, a maioria dos pais apresenta uma melhoria ou recuperação da sua adaptação. O facto de este tipo de resultados raramente ter sido encontrado em estudos anteriores sobre o tópico deve-se, em grande parte, ao facto de a maioria dos estudos se restringir à avaliação do funcionamento negativo individual (e.g., sintomatologia psicopatológica). Contudo, os nossos resultados sugerem que, após a ocorrência do diagnóstico de AC no bebé, os pais conseguem também manter uma avaliação positiva do seu bem-estar em diferentes dimensões de vida e sentir esperança.

Para interpretar estes resultados, parece-nos útil recorrer ao conceito de *disability paradox* (Albrecht & Devlieger, 1999), que surgiu no contexto da investigação da adaptação de adultos com deficiência. Este conceito procura traduzir a discrepância observada entre as limitações objetivas associadas à deficiência com que o indivíduo se confronta e a sua perceção subjetiva de bem-estar (isto é, os seus níveis elevados de qualidade de vida). De acordo com os autores, este aparente paradoxo tem uma explicação: a capacidade de os indivíduos com deficiência atribuírem um significado à sua condição e reinterpretarem adequadamente os seus papéis sociais e expectativas (Albrecht & Devlieger, 1999). O conceito de *disability paradox* foi muito recentemente revisitado no contexto da prestação de cuidados a crianças e adolescentes com paralisia cerebral (Carona, Pereira, Moreira, Silva, & Canavarro, no prelo); neste estudo, os

pais de crianças e adolescentes com paralisia cerebral apresentaram níveis de qualidade de vida similares aos pais de crianças e adolescentes saudáveis, apesar de experienciarem maior sobrecarga associada à prestação de cuidados (Carona et al., no prelo). Pensamos, pois, que a explicação apresentada por Albrecht e Devlieger (1999) pode não só generalizar-se a pais de crianças e adolescentes com deficiência, como também à nossa população-alvo, ou seja, a pais de bebês com AC.

Assim, a presença de indicadores de funcionamento positivo pode constituir um esforço ativo dos pais de bebês com AC para manter uma visão otimista do presente e do futuro e, por outro lado, representar o seu esforço de reatribuição de significado à situação e de readequação das suas expectativas, de forma a manter uma percepção geral positiva da vida com um bebê com AC (Dale et al., 2012). Esta visão positiva e otimista do futuro parece ter um papel importante quer ao lidar com a incerteza associada ao diagnóstico de AC (Graungaard & Skov, 2007), quer ao potenciar a redefinição de objetivos (Poehlmann, Clements, Abbeduto, & Farsad, 2005; Truitt, Biesecker, Capone, Bailey, & Erby, 2012), a mobilização dos recursos e a planificação das ações necessárias para promover o bem-estar da criança e da família, sem que isso invalide a compreensão adequada e realista, pelos pais, da situação e das suas exigências (Kearney & Griffin, 2001); a avaliação do grau de compreensão dos pais acerca da AC e das suas implicações é, aliás, uma variável muito importante a ter em conta pelos profissionais de saúde.

A importância dos recursos da família para a adaptação individual e parental: fatores de vulnerabilidade e de proteção

Os nossos resultados evidenciam a influência dos recursos pessoais (representações de vinculação) e do apoio social na adaptação individual e parental dos pais de bebês com AC, corroborando a perspetiva dos modelos de *stress* familiar (Boss, 2002; McCubbin & Patterson, 1983). Contudo, a influência dos recursos na adaptação parece apresentar diferenças, em função do género dos pais.

Especificamente, os nossos resultados sugerem que **representações de vinculação do *self* mais inseguras** parecem constituir um **fator de vulnerabilidade para as mães**, independentemente da (in)existência de problemas médicos no bebê, de forma congruente com a literatura (Berant et al., 2001; Feeney, 2003). As mães são habitualmente confrontadas com um maior número de exigências associadas aos cuidados ao bebê, que são potencialmente indutoras de *stress* (Demo & Cox, 2000); quando lidam com essas exigências, as mães com representações de vinculação do *self* mais inseguras tendem a avaliar as tarefas de prestação de cuidados como mais ameaçadoras e a si próprias como menos capazes de lidar com elas (Berant et al., 2001). Consequentemente, tendem a preocupar-se excessivamente com o seu sofrimento e a utilizar estratégias de *coping* focadas na emoção (e.g., ventilação) para lidar com ele, o que acentua as

suas manifestações de sintomatologia depressiva (Berant et al., 2001; Mikulincer & Florian, 1995, 1998). Através de mecanismos semelhantes, as representações de vinculação do *self* mais inseguras parecem constituir-se como um **fator de vulnerabilidade para a adaptação dos pais de bebês saudáveis e pais de bebês com AC**, na medida em que se associaram a níveis superiores de sintomatologia ansiosa, para os dois grupos de pais, e de sintomatologia depressiva, para os pais de bebês saudáveis. Importa realçar que os pais de bebês com AC apresentaram níveis acrescidos de sintomatologia depressiva, independentemente das representações de vinculação do *self*; é possível que a experiência de cuidar de um bebê com AC seja perspetivada, mesmo pelos pais com representações de vinculação seguras, como uma experiência ameaçadora e exigente, despoletando sintomatologia depressiva.

Por outro lado, as **representações de vinculação dos outros mais inseguras** parecem ser um **fator de vulnerabilidade apenas para a figura paterna, quando o bebê tem uma AC**. Assim, parece que as mães (independentemente da condição médica do bebê) e os pais de bebês saudáveis com representações de vinculação dos outros mais inseguras conseguem, quando confrontados com as exigências de cuidar do bebê, ativar eficazmente as suas estratégias de distanciamento (ao nível cognitivo e comportamental) e de evitamento de procura de apoio emocional e instrumental (Mikulincer & Florian, 1995, 1998); a ativação dessas estratégias parece inibir a manifestação de afeto negativo (Wei, Heppner, & Mallinckrodt, 2003), o que se reflete em níveis de sintomatologia psicopatológica semelhantes aos de mães e pais com representações de vinculação seguras. Contudo, as exigências de cuidar de um bebê com AC podem tornar-se tão elevadas para a figura paterna, que os pais com representações de vinculação dos outros mais inseguras deixam de conseguir utilizar de forma eficaz as estratégias de distanciamento; quando isso acontece, eles passam não só a avaliar negativamente a situação e a sua capacidade para lidar com ela, como também percecionam os outros como indisponíveis para prestar ajuda, intensificando a sua perturbação emocional (Berant et al., 2001; Mikulincer & Florian, 1995, 1998). Como referem Shaver e Mikulincer (2007), o stress intenso e prolongado “seems to shatter avoidant people’s characteristic defenses and causes them to look like anxiously attached people” (p. 455). É importante notar que, apesar de não termos encontrado o mesmo padrão para as mães de bebês com AC, é possível que, para elas, e à semelhança dos resultados do estudo de Berant et al. (2001), a ineficácia das estratégias de distanciamento apenas se verifique em condições em que as AC têm maior gravidade, pelas exigências e perceção de incontrolabilidade que lhes estão associadas. Esta hipótese deve ser investigada em estudos futuros. Em suma, os nossos resultados parecem corroborar a ideia de que a vinculação segura é um importante recurso interno para lidar com situações indutoras de *stress* (Mikulincer & Florian, 1995, 1998), como é o caso da ocorrência do diagnóstico de AC no bebê.

Adicionalmente, os resultados da nossa investigação mostram que mães e pais de bebês com AC **beneficiam da qualidade do apoio social recebido** – isto é, da satisfação com o apoio

social recebido por parte de diferentes fontes de apoio (Haber, Cohen, Lucas, & Baltes, 2007) – na sua adaptação parental, sendo esses benefícios também distintos em função do género dos pais.

Por um lado, as mães que estavam **mais satisfeitas com o apoio social recebido por parte da família** apresentavam níveis inferiores de *stress* parental. A família (incluindo o companheiro e a família de origem materna e paterna) é habitualmente a fonte que proporciona mais apoio nas tarefas de prestação de cuidados ao bebé, que constitui a necessidade materna de apoio mais proeminente neste período (Bost et al., 2002; Gameiro, Boivin, Canavarro, Moura-Ramos, & Soares, 2010; Guralnick, Hammond, Neville, & Connor, 2008). É também possível que as mães de bebés com AC percecionem o contexto familiar íntimo como um contexto favorável à partilha de emoções e opiniões acerca da AC. Pelo contrário, a **qualidade do apoio dos amigos não se revelou benéfica para a adaptação materna**, e diferentes explicações podem estar subjacentes a este resultado. Em primeiro lugar, a disponibilidade do apoio. É possível que as mães disponham de reduzidas oportunidades de interação com a rede de amigos, sobretudo durante os primeiros meses de vida do bebé (Kalmijn, 2012; Lawoko & Soares, 2003b), condicionando o benefício que o apoio social recebido pode ter na adaptação materna. Em segundo lugar, os constrangimentos que podem existir; podemos hipotetizar que as dificuldades comunicacionais com a rede social associadas ao diagnóstico de AC (Messias et al., 1995) podem criar dificuldades adicionais na relação das mães com a sua rede de amigos após o nascimento do bebé, comprometendo os possíveis benefícios da qualidade do apoio social recebido. Em terceiro e último lugar, a eficácia do apoio. É possível que o apoio recebido por parte da rede de amigos não esteja relacionado com as necessidades de apoio maternas mais proeminentes, não se refletindo em benefícios para a sua adaptação; isso pode verificar-se mesmo que as mães reportem elevada satisfação com o apoio recebido, uma vez que podem considerar que não é função da rede de amigos prestar apoio adequado a essas necessidades específicas.

Por outro lado, para a figura paterna, **maior satisfação com o apoio recebido por parte dos amigos, mas não por parte da família, revelou-se benéfica para a adaptação**. É possível que, ao contrário do que acontece para as mães, para os pais, o apoio dos amigos esteja não só mais disponível (os pais regressam mais cedo às suas rotinas laborais e diárias; Feldman, Sussman, & Zigler, 2004), como também seja mais eficaz na resposta às necessidades de apoio paternas (habitualmente mais relacionadas com as suas responsabilidades de gestão financeira, aspetos legais, contexto laboral, acesso a serviços de saúde e sociais). Esta explicação é consistente com o facto de os benefícios do apoio social dos amigos se refletirem não só na componente mais emocional da adaptação paterna (*stress* parental), mas também na dimensão de sobrecarga associada à prestação de cuidados, que reflete o impacto da condição de saúde da criança em diferentes dimensões de vida do indivíduo. Adicionalmente, é possível que a ausência de benefícios do apoio social recebido por parte da família se deva ao facto de os pais procurarem assumir o papel de apoio e proteção das suas companheiras neste período (Locock & Alexander, 2006). Especificamente, no contexto familiar mais restrito, os pais podem não só estar mais preocupados em prestar apoio às suas companheiras (nomeadamente nas tarefas de prestação de

cuidados) e a direcionar para elas o apoio dos outros membros da família, como também podem evitar sinalizar as suas necessidades de apoio à família ou partilhar as suas opiniões e preocupações no contexto familiar, de forma a não sobrecarregar e perturbar mais as suas companheiras. Este pode constituir-se, aliás, como uma razão adicional para os pais procurarem e beneficiarem mais do apoio recebido por parte da rede de amigos.

Em suma, a satisfação materna com o apoio social da família e a satisfação paterna com o apoio social dos amigos parecem constituir-se como **fatores de proteção** para a adaptação parental de pais de bebés com AC. Para além disso, mães e pais de bebés com AC não beneficiam apenas diretamente da qualidade do apoio social recebido, mas também beneficiam indiretamente, através da qualidade do apoio recebido pelos(as) companheiros(as), naquilo a que podemos chamar a **difusão de benefícios do apoio social**. Este aspeto salienta-nos a importância das dinâmicas e influências mútuas que ocorrem no contexto do casal/família, que discutiremos no próximo ponto.

Ser mãe e ser pai de um bebé com anomalia congénita: algumas pistas sobre a dinâmica familiar

Para além do que temos discutido até este ponto, os resultados dos diferentes estudos empíricos permitem-nos, de forma mais direta ou inferencial, apontar alguns aspetos que podem contribuir para compreender um pouco melhor a **dinâmica familiar de pais de bebés com AC**. Destacamos quatro aspetos: 1) a existência de processos de adaptação distintos nos dois membros do casal; 2) o papel de apoio e proteção às suas companheiras, que a figura paterna procura assumir; 3) o envolvimento paterno nos cuidados ao bebé com AC; e 4) as influências mútuas na adaptação dos dois membros do casal.

Em primeiro lugar, os nossos resultados apontam importantes diferenças de género na adaptação dos pais à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé. Especificamente, e de forma congruente com outros estudos (Mazer et al., 2008; Skari et al., 2006), as mães de bebés com AC apresentaram, por comparação aos seus companheiros, mais dificuldades de adaptação. Estas diferenças não são, contudo, distintas das diferenças de género encontradas em pais de bebés saudáveis; independentemente da condição médica do bebé, as mães confrontam-se com o maior número de mudanças e de exigências de prestação de cuidados, o que se parece traduzir em mais dificuldades de adaptação (Demo & Cox, 2000). No entanto, como discutimos pormenorizadamente no ponto anterior, as diferenças de género estendem-se também à forma como diferentes variáveis influenciam a adaptação materna e paterna, apontando para a **ocorrência de processos distintos na adaptação dos dois membros do casal**. Estes resultados são, aliás, consistentes com o conhecimento atual acerca da transição para a parentalidade de

pais de bebês saudáveis, que tem identificado diferenças de gênero, por exemplo, ao nível da relação entre representações de vinculação e estratégias de *coping* utilizadas (Alexander, Feeney, Hohaus, & Noller, 2001) ou ao nível da procura de apoio social (Levy-Shiff, 1999). Perante estes factos, torna-se essencial reconhecer as especificidades das experiências materna e paterna de adaptação ao diagnóstico de AC no bebé, quer do ponto de vista de investigações futuras, quer do ponto de vista das implicações para a prática clínica.

Em segundo lugar, os nossos resultados sugerem que, quando ocorre um diagnóstico de AC no bebé, **a figura paterna procura assumir um papel de proteção e apoio à figura materna**. Especificamente, a similaridade na resposta emocional materna e paterna à notícia do diagnóstico de AC e a elevada congruência nas reações emocionais dos dois membros do casal sugerem que o significado atribuído ao diagnóstico de AC e o impacto da sua ocorrência é semelhante para ambos os pais, e que as diferenças ocorrem predominantemente na forma como mães e pais manifestam o seu sofrimento emocional (sintomatologia psicopatológica). O papel masculino de proteção e apoio durante a transição para a parentalidade enquadra-se também nas expectativas sociais de gênero (Mander, 2004). No contexto específico da ocorrência do diagnóstico de AC, os pais podem considerar que as suas companheiras estão particularmente fragilizadas no momento do diagnóstico (e.g., quando o diagnóstico de AC ocorre durante a gravidez, são sujeitas aos exames médicos necessários para identificar a AC; quando o diagnóstico de AC ocorre após o nascimento do bebé, estão ainda a recuperar física e emocionalmente do parto), pelo que podem considerar ainda mais necessário assumir este papel de apoio e proteção (Locock & Alexander, 2006). Por um lado, isso pode contribuir para a inibição da expressão emocional da figura paterna, ou mesmo para o negligenciar do seu sofrimento emocional. Por outro lado, e como discutimos no ponto anterior, a assunção deste papel parece traduzir-se não só na tentativa de os pais serem uma fonte de apoio para as suas companheiras, mas também de redirecionarem para elas o apoio social dos restantes membros da família. Estas hipóteses devem ser exploradas em estudos futuros.

Em terceiro lugar, os resultados do nosso estudo, em particular os resultados acerca da confiança parental, parecem apontar para a **possibilidade de um maior envolvimento paterno na prestação de cuidados**, quando o bebé tem uma AC. Especificamente, a presença de uma AC no bebé parece refletir-se em menor confiança materna na dimensão relacionada com o conhecimento acerca do bebé, por comparação às mães de bebês saudáveis, corroborando a ideia de que a presença de problemas médicos no bebé pode colocar constrangimentos ao desenvolvimento da confiança parental (Freeman, 2006; Zahr, 1993). É possível que, dada a complexidade da informação médica sobre a AC (Aite, Zaccara, Trucchi, et al., 2006; Jedlicka-Köhler et al., 1996) e as exigências acrescidas de prestação de cuidados, as mães sintam menor confiança na sua capacidade de conhecer o bebé com AC e identificar as suas necessidades (McKim et al., 1995). De forma oposta, os pais de bebês com AC apresentaram, por comparação

com pais de bebés saudáveis, níveis superiores de confiança parental; as oportunidades de prestação de cuidados ao bebé constituem uma forma privilegiada de desenvolvimento da confiança parental (Hudson, Elek, & Fleck, 2001), pelo que este resultado pode sugerir que os pais de bebés com AC se envolvem mais nas tarefas de prestação de cuidados. Esta interpretação é também congruente com o que discutimos no ponto anterior, acerca da possibilidade de a experiência de parentalidade de um bebé com AC ser percecionada, para a figura paterna, como uma experiência mais ameaçadora e stressante – esta perceção pode decorrer do seu maior envolvimento na prestação de cuidados. O maior envolvimento paterno na prestação de cuidados pode também dever-se ao facto de, quando o bebé tem uma AC, as mães solicitarem mais a opinião e a ajuda dos pais, por se sentirem menos confiantes nas suas capacidades de identificar as necessidades do bebé e pelas dificuldades de interação com a criança (McKim et al., 1995).

Para além da participação nas tarefas de prestação de cuidados ao bebé (e.g., alimentação, higiene) e da presença e disponibilidade quotidiana para a interação com a criança, o conceito de envolvimento paterno inclui também a partilha de responsabilidades/decisões relacionadas com o bem-estar da criança, como por exemplo decisões acerca da saúde e cuidados de saúde (e.g., Lamb, Pleck, Charnov, & Levine, 1987; Pleck, 1997). Mães e pais de bebés com AC têm de assimilar informação complexa sobre a AC e, com base nela, tomar decisões (Statham et al., 2000); na medida em que este processo é habitualmente partilhado pelos membros do casal, é possível que isto contribua também para o maior envolvimento paterno quando o bebé tem uma AC.

Do nosso conhecimento, o envolvimento paterno tem sido uma variável pouco estudada em pais de bebés ou crianças com um diagnóstico de AC. No entanto, um estudo recente com pais de crianças com deficiência sugere que a figura paterna procura envolver-se na prestação de cuidados à criança com o objetivo de maximizar o funcionamento familiar e de manter a esperança no futuro (Huang, Chen, & Tsai, 2012). De forma congruente, num outro estudo verificou-se que mães e pais de crianças com deficiência percecionam níveis elevados de envolvimento paterno no papel de prestação de cuidados (Simmerman, Blacher, & Baker, 2001), apesar de as mães continuarem a assumir o papel de principais cuidadoras da criança (Olsson & Hwang, 2006). Todos estes aspetos sublinham a necessidade de examinar, em investigações futuras, o envolvimento paterno no contexto da parentalidade de um bebé com AC. Esta necessidade é ainda mais reforçada pelo facto de o maior envolvimento paterno na prestação de cuidados estar associado não só a melhores indicadores desenvolvimentais para a criança, como também ao bem-estar dos dois membros do casal (Bronte-Tinkew, Carrano, Horowitz, & Kimukawa, 2008; Plantin, Olukoya, & Ny, 2011; Simmerman et al., 2001).

Em quarto e último lugar, os nossos resultados apontam para a existência de **influências mútuas na adaptação dos dois membros do casal**. Por um lado, foram encontradas associações positivas e significativas entre a adaptação materna e paterna (cf. Estudos Empíricos III e V) e, ao longo do tempo, as diferenças de género encontradas foram menos acentuadas (cf. Estudo Empírico VI). Estes resultados sugerem que, apesar das diferenças encontradas na adaptação

materna e paterna, há também uma experiência que é partilhada pelo casal, desde a fase pós-diagnóstico ao confronto com as exigências e tarefas de prestação de cuidados ao bebé com AC durante os seus primeiros meses de vida.

Por outro lado, os resultados do Estudo Empírico V mostram que a perceção da qualidade do apoio social de um dos membros do casal influencia não só a sua adaptação, como a adaptação do outro membro do casal; este processo ocorre por via das influências mútuas existentes na adaptação, ou seja, pela influência que a adaptação materna tem na adaptação paterna, e vice-versa. Este processo tem sido pouco estudado em pais de crianças com um diagnóstico de AC ou deficiência (e.g., Gerstein et al., 2009; Gray, 2003), pelo que os mecanismos que lhe estão subjacentes são ainda pouco conhecidos. É possível que as dificuldades de adaptação de cada um dos membros do casal se possam refletir em dificuldades ao nível da interação conjugal, nomeadamente em termos de conflito e problemas de comunicação entre o casal (Beach & O'Leary, 1993; Joiner, 2002; Rehman, Gollam, & Mortimer, 2008), afetando a adaptação do outro membro. É também possível que as dificuldades de adaptação experienciadas por um dos membros do casal possam constituir uma fonte adicional de preocupação para o outro membro do casal, contribuindo para intensificar as suas próprias dificuldades de adaptação; por exemplo, Gray (2003) verificou que o sofrimento emocional paterno era acentuado pela sua preocupação com o sofrimento das suas companheiras. Estes mecanismos devem ser mais bem investigados em estudos futuros.

2. Contributos para a investigação: pontos fortes e limitações do presente trabalho e implicações para a investigação futura

Pontos fortes e limitações do estudo

Consideramos que a nossa investigação apresenta alguns pontos fortes que fazem dela um contributo válido para o conhecimento atual sobre o processo de (in)adaptação à parentalidade de um bebé com AC. Em primeiro lugar, destacamos a adoção de uma **abordagem compreensiva e multidimensional do conceito de adaptação** (Cummings et al., 2000). Ao adotar esta abordagem, incluímos indicadores de adaptação escassamente utilizados na investigação com esta população, nomeadamente indicadores de funcionamento positivo individual e parental (e.g., qualidade de vida e confiança parental). Além disso, para além de indicadores mais gerais de adaptação, utilizámos indicadores para avaliar aspetos específicos desta população (reações emocionais à notícia do diagnóstico de AC, sobrecarga associada à prestação de cuidados); estas opções possibilitaram traçar um perfil mais completo do impacto da ocorrência do diagnóstico de AC no bebé na adaptação dos pais.

Em segundo lugar, destacamos o **foco do estudo num período específico** – a fase pós-diagnóstico e os primeiros meses de vida do bebê – que não tem sido muito investigado, uma vez que a maioria dos estudos se centra na adaptação de pais de crianças mais velhas com AC. Contudo, conhecer melhor a adaptação dos pais no período subsequente ao diagnóstico de AC é essencial, não só para promover a adaptação nesse período mas também para prevenir dificuldades futuras de adaptação. Para efeitos comparativos, utilizámos um grupo de controlo constituído por pais de bebês saudáveis (com características sociodemográficas e clínicas semelhantes às do grupo clínico), avaliado em períodos temporalmente semelhantes, o que reforça a validade das conclusões obtidas acerca do impacto específico da ocorrência do diagnóstico de AC na adaptação individual e parental.

Em terceiro lugar, consideramos que a **inclusão de mães e pais** no estudo constituiu também um importante contributo, permitindo-nos conhecer melhor a experiência paterna e algumas diferenças de género no processo de adaptação, pouco investigadas anteriormente, bem como as influências mútuas na adaptação dos dois membros do casal. Para esta compreensão, foi essencial o reconhecimento, sob o ponto de vista conceptual e estatístico, da não-independência entre os membros do casal (Kenny et al., 2006). Em quarto e último lugar, a **natureza longitudinal** do estudo, que possibilitou não só a caracterização da adaptação dos pais de bebês com AC em diferentes momentos, mas também permitiu captar os seus diferentes percursos ou trajetórias de (in)adaptação, o que se revelou um contributo importante para o conhecimento atual e permitiu levantar questões para a investigação futura.

Além dos pontos fortes, este trabalho possui também diversas limitações que importa assinalar e considerar na interpretação dos resultados. A primeira limitação - e, na nossa opinião, a principal - prende-se com o **tamanho da amostra**, particularmente se consideramos o estudo prospetivo longitudinal (Estudo Empírico VI) e o estudo focado no último momento de avaliação (Estudo Empírico V). A implementação de um estudo longitudinal tem subjacente a possibilidade de atrito experimental, o que também se verificou no nosso estudo, numa percentagem semelhante a outros estudos; além disso, os pais que participaram nos diferentes momentos de avaliação não se diferenciaram, do ponto de vista sociodemográfico e clínico, dos que desistiram da participação durante o estudo (cf. Capítulo 2), o que confere alguma representatividade aos nossos resultados. De forma geral, as análises de poder estatístico efetuadas *a posteriori* sugerem que o tamanho da amostra é adequado para a deteção de efeitos de magnitude média a elevada; deste modo, efeitos pequenos (e.g., na análise das diferenças de género ou da influência de algumas variáveis) podem não ter sido detetados, o que deve ser tido em consideração na leitura dos nossos resultados. Também devido ao tamanho da amostra, tivemos de adequar as análises estatísticas escolhidas (e.g., utilização de testes não paramétricos no Estudo Empírico II), abdicando de técnicas estatísticas mais sofisticadas (e.g., modelos de crescimento latente, para

identificar as trajetórias individuais de adaptação) que, com uma amostra superior, poderiam oferecer um contributo diferente para responder às questões de investigação que colocámos.

A segunda limitação prende-se com a **constituição da amostra**. No nosso estudo, adotámos uma abordagem não-categorial (Silver, Westbrook, & Stein, 1998) das AC, incluindo pais de bebés com diferentes tipos de AC. Com os dados deste estudo, julgamos ser possível fazer uma caracterização geral da experiência de receber a notícia do diagnóstico e de cuidar de um bebé com AC, que permite estabelecer algumas implicações para a atuação dos profissionais de saúde que prestam os primeiros cuidados de saúde a estes casais, habitualmente no contexto de Serviços de Obstetrícia e/ou Neonatologia. No entanto, isso não nos abstém de reconhecer as características e exigências específicas das diferentes AC e a importância de, noutros estudos, se investigarem essas especificidades. Para além disso, apesar de não o termos feito no nosso estudo, teria também sido importante a utilização de indicadores objetivos da gravidade que constituíssem um referencial comum para os diferentes tipos de AC.

Consideramos que uma terceira limitação está relacionada com os **métodos de recolha de informação**. Como referimos, para avaliar algumas especificidades associadas à comunicação do diagnóstico de AC, e na falta de instrumentos para o efeito, desenvolvemos um conjunto de questões (cf. Capítulo 2). Apesar de o desenvolvimento destas questões ter tido por base estudos anteriores, julgamos que a inexistência de estudos prévios de validade justifica a necessidade de algum cuidado na interpretação dos resultados, bem como a necessidade de replicar estes resultados em estudos futuros.

Implicações para a investigação futura

Os contributos e as limitações que apontámos ao nosso estudo constituem o ponto de partida para refletir acerca de investigações futuras. Especificamente, destacamos a necessidade de **conduzir estudos que abarquem a complexidade do processo de adaptação dos pais** ao diagnóstico de AC, quer do ponto de vista do desenho metodológico (estudos prospetivos longitudinais) e dos participantes (incluindo simultaneamente mães e pais), quer dos métodos de recolha (incluindo diversos indicadores de adaptação, de funcionamento positivo e negativo, gerais e específicos da população-alvo). A realização de estudos sobre este tópico com uma amostra maior, nomeadamente que permita constituir grupos de pais de bebés com diferentes tipos de AC, permitirá não só conhecer melhor aspetos que não foi possível investigar no nosso estudo como, em particular, investigar algumas especificidades do processo de adaptação em função do tipo de AC (análises de moderação). No entanto, não podemos esquecer que, dada a baixa prevalência total de AC (cf. Capítulo 1), para obter amostras maiores é necessário o recrutamento dos participantes em diversos estabelecimentos de saúde, o que tem subjacente a necessidade de mais recursos afetos à investigação.

Adicionalmente, as pistas sugeridas pela interpretação de alguns dos resultados obtidos e as questões que, a partir dessa interpretação, se levantaram, merecem ser investigadas em estudos posteriores. Neste contexto, destacamos, em primeiro lugar, a **importância de conhecer melhor a experiência paterna de adaptação** à ocorrência do diagnóstico de AC, nomeadamente explorar as hipóteses que estabelecemos sobre o papel de apoio e proteção das companheiras assumido pela figura paterna e sobre o maior envolvimento paterno na prestação de cuidados quando o bebê tem uma AC. A inclusão destas variáveis nas investigações constituirá um contributo importante para o conhecimento existente sobre o tópico. Em segundo lugar, destacamos a importância de conhecer o **significado atribuído pelos pais à ocorrência do diagnóstico de AC**, a sua variabilidade ao longo do tempo e em função de diferentes variáveis, e a sua influência na adaptação. Para este efeito, consideramos que poderá ser útil a conjugação de metodologias qualitativas (para avaliar o significado atribuído ao diagnóstico de AC) e quantitativas (para avaliar a adaptação). Em terceiro lugar, tendo em conta os nossos resultados exploratórios acerca dos percursos individuais de (in)adaptação, consideramos ser importante conhecer as variáveis que diferenciam os pais que apresentam, respetivamente, uma **trajetória mais inadaptativa e uma trajetória mais resiliente**; este conhecimento possibilitará, no futuro, a identificação de um conjunto de fatores/mecanismos de vulnerabilidade e de proteção que podem ser, respetivamente, minorados ou promovidos noutros casais expostos ao mesmo acontecimento indutor de *stress*, isto é, à ocorrência do diagnóstico de AC no bebê.

Por último, importa referir que a condução bem-sucedida de uma investigação implica uma estratégia de equilíbrio entre o que é importante investigar, à luz do conhecimento atual, e a exequibilidade da investigação, obrigando-nos a tomar opções sobre os tópicos a investigar (por exemplo, no que respeita às variáveis a incluir no protocolo de avaliação, de forma a conseguir uma taxa elevada de participação). No entanto, reconhecemos que existem outras dimensões de adaptação (e.g., adaptação conjugal), bem como outros mecanismos/processos subjacentes à (in)adaptação dos pais de bebés com AC (e.g., estratégias de *coping*, *coping* diádico), que não foram considerados no nosso estudo e devem ser objeto de investigação em estudos futuros.

3. Contributos para a prática clínica

Os resultados do nosso estudo oferecem-nos também contributos que permitem delinear algumas implicações para a prática clínica. Esta reflexão foi influenciada não só pela literatura existente sobre o tópico (Davis, 1993; Marshak & Prezant, 2007; Pelchat & Lefebvre, 2005), como também pela nossa própria experiência clínica com estes casais, integrada no contexto de uma equipa interdisciplinar de profissionais de saúde.

No modelo de trabalho colaborativo e interdisciplinar com outros profissionais de saúde (e.g., equipa médica e de enfermagem), a atuação do psicólogo clínico não se restringe à

intervenção psicológica para promover a adaptação dos pais de bebés com AC, mas inclui, entre outros aspetos, a **sensibilização dos profissionais de saúde que prestam cuidados a estes casais** (Belar, 2003), nomeadamente informando-os acerca de algumas especificidades do processo de (in)adaptação dos pais de bebés com AC, bem como refletindo com eles acerca de diferentes estratégias de atuação. Começamos, assim, por refletir acerca das implicações dos nossos resultados para a atuação dos profissionais de saúde envolvidos na prestação de cuidados aos pais e aos bebés com AC.

Em primeiro lugar, é importante que todos os profissionais de saúde da equipa interdisciplinar reconheçam o impacto emocional, para os pais, da ocorrência de um diagnóstico de AC no período pré ou pós-natal, identificando as reações emocionais mais comuns à notícia do diagnóstico e a sua diversidade. Consequentemente, os pais devem ter a oportunidade de, após a comunicação da notícia do diagnóstico, expressar as suas emoções e opiniões num ambiente empático, seguro e não ameaçador. Além disso, do ponto de vista da atuação dos profissionais de saúde, é também importante refletir, por exemplo, acerca das estratégias de comunicação sobre o diagnóstico de AC. Especificamente, tendo em conta que reações emocionais negativas mais intensas podem comprometer a retenção e compreensão da informação sobre a AC (Aite et al., 2004), é importante que os profissionais de saúde proporcionem diferentes momentos de contacto com os pais para repetir a informação sobre a AC, ofereçam outras fontes de informação complementares válidas (e.g., material escrito), procurem obter *feedback* acerca do que é compreendido pelos pais e mantenham disponibilidade constante para o esclarecimento de dúvidas (Aite et al., 2004; Jedlicka-Köhler et al., 1996).

Em segundo lugar, é importante sensibilizar os profissionais de saúde para a heterogeneidade dos percursos individuais de (in)adaptação dos pais de bebés com AC, desde a fase pós-diagnóstico até seis meses após o nascimento do bebé. Por um lado, pelo contacto privilegiado que têm com os pais, os profissionais de saúde podem ter um papel importante na sinalização e identificação dos pais que apresentam dificuldades continuadas de adaptação, que podem beneficiar de intervenção psicológica estruturada. Por outro lado, os profissionais de saúde podem, com a sua atuação, contribuir para a promoção da adaptação dos pais de bebés com AC. Especificamente, as necessidades de informação dos pais sobre a AC devem constituir um foco contínuo de atenção por parte dos profissionais de saúde; como referimos na discussão dos resultados, é possível que a obtenção de informação mais específica sobre a AC e sobre as opções de tratamento disponíveis após o nascimento do bebé sejam um fator importante para a melhoria da adaptação dos pais, ao permitir a recuperação de algum controlo da situação e a possibilidade de planificar e antecipar o futuro. Adicionalmente, é importante que os profissionais de saúde estejam atentos ao facto de a experiência de cuidar de um bebé com AC poder ser percecionada como uma experiência ameaçadora para ambos os pais, refletindo-se mesmo em níveis inferiores de confiança materna; os pais de bebés com AC podem beneficiar de um acompanhamento diferenciado pelos profissionais de saúde, no que diz respeito ao ensino de

competências de prestação de cuidados (e.g. alimentação, higiene, identificação das necessidades do bebê), com especial relevância para as dificuldades específicas associadas a cada tipo de AC. Por último, nas situações em que é necessária uma monitorização médica mais frequente ou mesmo o internamento do bebê, é importante que os profissionais de saúde proporcionem as condições necessárias para favorecer o envolvimento dos pais na prestação de cuidados e a interação gratificante com a criança, para que estes não sintam o seu papel parental diminuído (Jones et al., 2005).

Em terceiro lugar, como discutimos anteriormente, os pais de bebês com AC apresentaram indicadores positivos de adaptação (esperança, qualidade de vida), não obstante o impacto emocional negativo da notícia do diagnóstico de AC. Como sublinharam alguns autores, estes indicadores tendem a ser interpretados por alguns profissionais de saúde como estando associados à negação dos acontecimentos ou à compreensão irrealista da informação sobre a AC, o que não tem sido demonstrado nas investigações (Kearney & Griffin, 2001; Sommerseth & Sundby, 2010). Os profissionais de saúde devem estar sensibilizados para a presença destes indicadores positivos enquanto parte integrante da experiência de adaptação dos pais ao diagnóstico de AC, criando condições para a sua manifestação e promoção, na medida em que estes indicadores podem constituir um importante fator de mobilização de recursos para lidar com a ocorrência do diagnóstico de AC.

Em quarto e último lugar, tendo em conta a centralidade e a relevância dos diversos resultados acerca da experiência paterna no nosso estudo, não podemos deixar de destacar a importância de integrar, sempre que possível, os dois membros do casal, durante o processo de comunicação do diagnóstico de AC e de transmissão da informação sobre a AC, nos processos de tomada de decisão associados ao diagnóstico de AC e, ainda, no ensino/treino de competências específicas de prestação de cuidados ao bebê com AC.

A reflexão acerca dos nossos resultados permite também apontar algumas implicações para a atuação da equipa de Psicologia, no contexto da **intervenção com os pais**, para promover a sua adaptação à ocorrência do diagnóstico de AC no bebê. Ao assumirmos uma abordagem não-determinista e não-patológica do impacto do diagnóstico de AC na adaptação dos pais, que é corroborada pela diversidade de resultados e percursos de (in)adaptação que observámos no nosso estudo, não defendemos a necessidade de intervenção psicológica estruturada para todos os casais que vivenciam a experiência de parentalidade de um bebê com AC. Contudo, sabemos que a adaptação dos pais num determinado momento pode influenciar a sua adaptação futura (Cicchetti, 2006; Taanila et al., 2002); nesse sentido, o período pós-diagnóstico no qual centrámos este estudo pode constituir-se como uma oportunidade privilegiada para, por um lado, sinalizar pais que possam estar em risco para dificuldades de adaptação e, por outro lado, desenvolver algumas estratégias preventivas para a promoção da adaptação dos pais de bebês com AC. Assim, com base nos nossos resultados, defendemos que a intervenção clínica com pais de bebês com AC deve ocorrer a dois níveis: 1) avaliação compreensiva de todos os casais e

desenvolvimento de algumas estratégias preventivas para promoção da sua adaptação; e 2) intervenção psicológica estruturada dirigida aos casais que apresentam dificuldades continuadas de adaptação.

Avaliação abrangente de todos os casais e desenvolvimento de algumas estratégias preventivas para promoção da sua adaptação

O contacto inicial do psicólogo com todos os casais cujo bebé foi diagnosticado com uma AC no período pré ou pós-natal deve ocorrer, idealmente, na fase pós-diagnóstico, podendo estar limitado a uma sessão única ou prolongar-se por algumas sessões. Dando continuidade à atuação dos outros profissionais de saúde, a interação entre o psicólogo e os pais deve ser uma oportunidade para os últimos partilharem, individualmente e em casal, emoções positivas e negativas associadas à comunicação da notícia do diagnóstico de AC, bem como opiniões e perceções/avaliações acerca da AC. É importante construir com os pais uma relação de empatia, confiança e respeito mútuo (Davis, 1993), para que esta partilha de emoções e opiniões acerca do diagnóstico de AC constitua uma oportunidade de **validação da experiência emocional** dos pais.

O contacto com os casais é também um período-chave para uma **avaliação abrangente dos pais de bebés com AC**, que permita sinalizar aqueles que necessitam de ser foco de atenção clínica, ou seja, de intervenção psicológica estruturada. Por um lado, a avaliação possibilita *identificar os pais que apresentam mais dificuldades de adaptação no momento atual* e que, por isso, estão em maior risco para dificuldades de adaptação futuras. Para isso, é necessário considerar uma abordagem multidimensional da adaptação como aquela que nos orientou ao longo do presente trabalho (Cummings et al., 2000), isto é, que não defina as dificuldades de adaptação exclusivamente como presença de sintomatologia psicopatológica, mas antes como um perfil que engloba também dificuldades de funcionamento a outros níveis (e.g., perceção de reduzida qualidade de vida numa ou em mais dimensões, baixa confiança parental). Por outro lado, uma avaliação abrangente possibilita *identificar os pais que, mesmo não apresentando dificuldades de adaptação no momento atual, estão em maior risco para dificuldades de adaptação atuais e/ou futuras*. Para isso, torna-se importante avaliar aspetos como: a perceção/avaliação dos pais acerca da experiência de parentalidade de um bebé com AC como mais ou menos ameaçadora; as expectativas parentais acerca das suas dificuldades atuais e futuras na prestação de cuidados ao bebé; a compreensão e as necessidades de informação dos pais; e os recursos da família (e.g., representações de vinculação, apoio social) que podem ser fatores de vulnerabilidade ou proteção para a (in)adaptação dos pais à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé.

Na medida em que a ocorrência do diagnóstico de AC é frequentemente inesperada (Lalor et al., 2009) e muitos casais não têm um referencial prévio que os ajude a saber como lidar

com a situação (Rolland, 1999), é útil fornecer aos pais **psicoeducação** acerca de alguns aspetos, nomeadamente: i) as reações emocionais mais comuns à notícia do diagnóstico de AC e a sua diversidade, bem como as possíveis implicações das reações emocionais, por exemplo, ao nível das dificuldades de compreensão da informação – normalizando essas dificuldades de compreensão e a conseqüente necessidade de procurar ativamente informação sobre a AC para restituir o controlo sobre a situação; ii) a necessidade de ter de lidar simultaneamente com as mudanças e reorganizações inerentes à transição para a parentalidade e com as exigências específicas do diagnóstico de AC; iii) o facto de a maioria dos pais apresentar uma melhoria ou recuperação da adaptação ao longo do tempo, apesar do reconhecimento da diversidade de trajetórias ou percursos de (in)adaptação; e iv) as semelhanças e diferenças comumente encontradas na resposta de adaptação de mães e pais de bebés com AC e o possível significado dessas diferenças (e.g., papel de apoio e proteção que os pais costumam assumir face às suas companheiras).

Apesar de esta fase não ter como objetivo a implementação de estratégias de intervenção psicológica específicas, é possível que, de forma mais geral, possa ser útil para os pais **abordar algumas estratégias que, de forma preventiva, promovam a sua adaptação** à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé. Neste contexto, destacamos, por exemplo, estratégias que favoreçam a expressão emocional e de opiniões acerca do diagnóstico, individualmente (e.g., manutenção de um diário) e entre os membros do casal (e.g., criação de contextos adequados para a comunicação entre o casal) ou, por outro lado, estratégias que ajudem os pais a lidar com a intensidade das reações emocionais após a comunicação da notícia do diagnóstico de AC (e.g., estruturação de rotinas diárias, equilíbrio entre estratégias de *coping* focadas na emoção, como a ventilação, e estratégias de *coping* focadas na resolução de problemas).

Intervenção psicológica estruturada dirigida aos casais que apresentam dificuldades continuadas de adaptação

Como referimos, a intervenção psicológica estruturada poderá revelar-se benéfica para os pais que apresentam dificuldades continuadas de adaptação ou que estão em maior risco para dificuldades de adaptação atuais ou futuras. É importante salientar que os resultados do nosso estudo, focando-se na diversidade de percursos de (in)adaptação e não apenas nas trajetórias mais inadaptativas, não nos permitem delinear, com pormenor, um protocolo de intervenção psicológica estruturada para os pais de bebés com AC que dela necessitem; contudo, as reflexões que decorrem dos nossos resultados permitem-nos sublinhar algumas linhas orientadoras que podem contribuir para a definição futura de um protocolo de intervenção psicológica.

Em primeiro lugar, é essencial delinear *objetivos específicos de intervenção psicológica que sejam adequados ao perfil do impacto do diagnóstico de AC para cada casal*, isto é, que

promovam a adaptação nas áreas de funcionamento mais afetadas pela ocorrência do diagnóstico de AC nesse casal e a manutenção do bom funcionamento nas áreas não afetadas pela ocorrência do diagnóstico de AC. Neste contexto, a seleção das estratégias de intervenção utilizadas deve ser adequada às áreas de funcionamento específicas; por exemplo, podem ser utilizadas estratégias de higiene do sono para promover a melhoria da qualidade de vida no domínio físico, estratégias de planificação de atividades gratificantes (nomeadamente relacionadas com a interação com a criança) para promover a redução da sintomatologia depressiva ou, ainda, treinos de competências específicas para o desenvolvimento da confiança parental.

Em segundo lugar, é importante *incluir os dois membros do casal na intervenção psicológica*, mesmo que apenas um deles apresente dificuldades de adaptação que justifiquem a sua sinalização. De facto, apesar de os nossos resultados sugerirem que as mães de bebés com AC tendem a apresentar mais dificuldades de adaptação do que os seus companheiros, também sublinham a importância de não negligenciar as especificidades da experiência paterna, como o envolvimento paterno na prestação de cuidados ao bebé e o papel de apoio e proteção das suas companheiras que os pais procuram assumir. Além disso, os nossos resultados apontam para a existência de influências mútuas na adaptação dos membros do casal, pelo que a eficácia da intervenção psicológica será potenciada pela inclusão dos dois membros do casal.

Assim, a intervenção psicológica deve procurar envolver ambos os membros do casal no processo de intervenção, trabalhando questões relacionadas com o seu funcionamento. Por exemplo, quando discutimos a questão das influências mútuas na adaptação dos dois membros do casal, referimos que estas influências mútuas poderiam estar relacionadas com dificuldades de interação entre o casal (conflito, problemas de comunicação) originadas pelas dificuldades de adaptação de cada um dos seus membros; este aspeto deve ser foco de atenção clínica (Marshak & Prezant, 2007). No entanto, o foco no casal não invalida a oportunidade de, no contexto da intervenção psicológica, atender às especificidades da experiência materna e paterna.

Em terceiro lugar, a intervenção psicológica deve centrar-se em *minorar os fatores de vulnerabilidade e potenciar os fatores de proteção* para a (in)adaptação dos pais à ocorrência do diagnóstico de AC no bebé. No nosso estudo, identificámos que as representações de vinculação inseguras do *self* (para mães e pais de bebés com AC) e dos outros (apenas para pais de bebés com AC) podem ser fatores de vulnerabilidade para a adaptação ao nascimento de um bebé com AC. Dado o carácter tendencialmente estável das representações de vinculação, é importante que a intervenção psicológica se foque, pelo menos numa fase inicial, na modificação das consequências dessas representações de vinculação, quando os pais lidam com a experiência de cuidar de um bebé com AC. Especificamente, devem ser implementadas estratégias para modificar a avaliação que os pais com representações de vinculação mais inseguras fazem da situação como mais ameaçadora, ajudando-os, por exemplo a identificar aspetos positivos na sua interação com o bebé, a reforçar situações de interação e de prestação de cuidados bem-sucedidas ou a reinterpretar situações negativas. Além disso, para favorecer a sua perceção de

competência para lidar com a situação, os pais devem ser ajudados a identificar as competências parentais que possuem, bem como aquelas que devem ser promovidas, delineando um plano específico para as desenvolver. É também importante fomentar, nos pais com representações de vinculação mais inseguras, a substituição de estratégias de *coping* que se revelam desadaptativas (por exemplo, algumas estratégias de *coping* focadas na emoção para os pais com representações de vinculação insegura do *self*, evitamento para os pais com representações de vinculação insegura dos outros) por outras que promovam uma adaptação bem-sucedida dos pais (por exemplo, algumas estratégias focadas na resolução de problemas).

Para além disso, verificámos também no nosso estudo que a *qualidade do apoio* recebido por parte da família e dos amigos se constitui como um *fator de proteção* para a adaptação à parentalidade de um bebê com AC. Neste contexto, torna-se essencial desenvolver estratégias para promover a ativação do apoio por parte da família e dos amigos, atendendo às diferentes necessidades de apoio maternas e paternas. Para isso, é importante ajudar mães e pais a identificar as suas principais necessidades de apoio, na fase pós-diagnóstico e durante os primeiros meses após o nascimento do bebê, bem como as fontes que melhor podem proporcionar apoio para satisfazer essas necessidades. Os casais devem também ser ajudados a desenvolver competências de comunicação com a rede social acerca das suas necessidades de apoio, sinalizando-as e fornecendo *feedback* sobre a eficácia do apoio recebido. Se existirem dificuldades comunicacionais com a rede social associadas ao diagnóstico de AC, estas devem ser também objeto de intervenção. Ainda neste contexto, consideramos ser importante prestar atenção aos efeitos que o papel de apoio e proteção assumido pela figura paterna pode ter, quer ao nível do não reconhecimento das suas necessidades de apoio por parte da rede social (Hildingsson & Sjöling, 2011; Premberg, Hellström, & Berg, 2008), quer da negligência das suas próprias dificuldades de adaptação; quando estes efeitos forem identificados, devem também ser foco de intervenção psicológica.



Referências bibliográficas

Referências

- Abell, N., Springer, D., & Kamata, A. (2009). *Developing and validating rapid assessment instruments*. Oxford: Oxford University Press.
- Abidin, R. (1992). The determinants of parenting behavior. *Journal of Clinical Child Psychology, 21*(4), 407-412. doi: 10.1207/s15374424jccp2104_12
- Abidin, R. (1995). *Parenting Stress Index: Professional manual*. Odessa: Psychological Assessment Resources Inc.
- Abramsky, L., Hall, S., Levitan, J., & Marteau, T. (2001). What parents are told after prenatal diagnosis of a sex chromosome abnormality: Interview and questionnaire study. *British Medical Journal, 322*, 463-466. doi: 10.1136/bmj.322.7284.463
- Achenbach, T. (1990). What is "developmental" about developmental psychopathology? In J. Rolf, A. Masten, D. Cicchetti, K. H. Nuechterlein, & S. Weintraub (Eds.), *Risk and protective factors in the development of psychopathology* (pp. 29-48). New York: Cambridge University Press.
- Ähman, A., Lindgren, P., & Sarkadi, A. (2012). Facts first, then reaction: Expectant fathers' experiences of an ultrasound screening identifying soft markers. *Midwifery, 28*(5), e667-e675. doi: 10.1016/j.midw.2011.07.008
- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Casaccia, G., Zaccara, A., Giorlandino, C., & Bagolan, P. (2004). Antenatal diagnosis of diaphragmatic hernia: Parents' emotional and cognitive reactions. *Journal of Pediatric Surgery, 39*(2), 174-178. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2003.10.010
- Aite, L., Trucchi, A., Nahom, A., Zaccara, A., Casaccia, G., & Bagolan, P. (2003). A challenging intervention with maternal anxiety: Babies requiring surgical correction of a congenital anomaly after missed prenatal diagnosis. *Infant Mental Health Journal, 24*(6), 571-579. doi: 10.1002/imhj.10075
- Aite, L., Zaccara, A., Nahom, A., Trucchi, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Mothers' adaptation to antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies. *Early Human Development, 82*, 649-653. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2005.12.010
- Aite, L., Zaccara, A., Trucchi, A., Nahom, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Parents' informational needs at the birth of a baby with a surgically correctable anomaly. *Pediatric Surgery International, 22*, 267-270. doi: 10.1007/s00383-005-1631-2

- Albrecht, G., & Devlieger, P. (1999). The disability paradox: High quality of life against all odds. *Social Science & Medicine*, *48*, 977-988. doi: 10.1016/S0277-9536(98)00411-0
- Albuquerque, S., Fonseca, A., Pereira, M., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011). Estudos psicométricos da versão Portuguesa da Escala de Impacto Familiar (EIF). *Laboratório de Psicologia*, *9*(2), 175-189.
- Alexander, R., Feeney, J., Hohaus, L., & Noller, P. (2001). Attachment style and coping resources as predictors of coping strategies in the transition to parenthood. *Personal Relationships*, *8*, 137-152. doi: 10.1111/j.1475-6811.2001.tb00032.x
- Allen, J., & Mulhauser, L. (1995). Genetic counseling after abnormal prenatal diagnosis: Facilitating coping in families who continue their pregnancies. *Journal of Genetic Counseling*, *4*, 251-265. doi: 10.1007/BF01408072
- Andreu, Y., Galdón, M. J., Dura, E., Ferrando, M., Murguì, S., García, A., & Ibáñez, E. (2008). Psychometric properties of the Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18) in a Spanish sample of outpatients with psychiatric disorders. *Psicothema*, *20*(4), 844-850.
- American Psychological Association. (2010). *Publication manual of the American Psychological Association* (6th ed.). London: American Psychological Association.
- Asner-Self, K., Schreiber, J., & Marotta, S. (2006). A cross-cultural analysis of the Brief Symptom Inventory-18. *Cultural Diversity and Ethnic Minority Psychology*, *12*(2), 367-375. doi: 10.1037/1099-9809.12.2.367
- Badr, L. K. (2005). Further psychometric testing and use of The Maternal Confidence Questionnaire. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, *28*, 163-174. doi: 10.1080/01460860500227572
- Baker, S., Owens, J., Stern, M., & Willmot, D. (2009). Coping strategies and social support in the family impact of cleft lip and palate and parents' adjustment and psychological distress. *The Cleft Palate - Craniofacial Journal*, *46*(3), 229-236. doi: 10.1597/08-075.1
- Bayat, M. (2007). Evidence of resilience in families of children with autism. *Journal of Intellectual Disability Research*, *51*(9), 702-714. doi: 10.1111/j.1365-2788.2007.00960.x
- Beach, S., & O'Leary, K. D. (1993). Dysphoria and marital discord: Are dysphoric individuals at risk for marital adjustment? *Journal of Marital and Family Therapy*, *19*, 355-368.
- Behr, S., Murphy, D., & Summers, J. (1992). *Users manual: Kansas Inventory of Parental Perceptions (KIPP)*. Lawrence: Beach Centre on Families and Disability.
- Belar, C. (2003). Models and concepts. In S. Llewelyn, & P. Kennedy (Eds.), *Handbook of Clinical Health Psychology* (pp. 7-20). West Sussex: John Wiley & Sons, Ltd.
- Berant, E., Mikulincer, M., & Florian, V. (2001). The association of mothers' attachment style and their psychological reactions to the diagnosis of infant's congenital heart disease. *Journal of Social and Clinical Psychology*, *20*(2), 208-232. doi: 10.1521/jscp.20.2.208.22264
- Berant, E., Mikulincer, M., & Florian, V. (2003). Marital satisfaction among mothers of infants with congenital heart disease: The contribution of illness severity, attachment style, and the

- coping process. *Anxiety, Stress, and Coping*, 16(4), 397-415. doi: 10.1080/10615580031000090079
- Bijma, H., Heide, A., & Wildschut, H. (2008). Decision-making after ultrasound diagnosis of fetal abnormality. *Reproductive Health Matters*, 16(31), 82-89. doi: 10.1007/s11296-007-0070-0
- Bonanno, G. (2004). Loss, trauma, and human resilience: Have we underestimated the human capacity to thrive after extremely aversive events? *American Psychologist*, 59, 20-28. doi: 10.1037/0003-066x.59.1.20
- Bonanno, G. (2005). Resilience in the face of potential trauma. *Current Directions in Psychological Science*, 14, 135-138. doi: 10.1111/j.0963-7214.2005.00347.x
- Boss, P. (2002). *Family stress management: A contextual approach* (2nd ed.). London: SAGE.
- Bost, K., Cox, M., Burchinal, M., & Payne, C. (2002). Structural and supportive changes in couples' family and friendship networks across the transition to parenthood. *Journal of Marriage and Family*, 64(2), 517-531. doi: 10.1111/j.1741-3737.2002.00517.x
- Boyle, F., Vance, J., Najman, J., & Thearle, M. (1996). The mental health impact of stillbirth, neonatal death or SIDS: Prevalence and patterns of distress among mothers. *Social Science & Medicine*, 43(8), 1273-1282. doi: 10.1016/0277-9536(96)00039-1
- Brandon, P. (2007). Time away from "smelling the roses": Where do mothers raising children with disabilities find time to work? *Social Science & Medicine*, 65(4), 667-679. doi: 10.1016/j.socsimed.2007.04.007
- Brisch, K. H., Munz, D., Bemmerer-Mayer, K., Terinde, R., Kreienberg, R., & Kächele, H. (2003). Coping styles of pregnant women after prenatal ultrasound screening for fetal malformation. *Journal of Psychosomatic Research*, 55, 91-97. doi: 10.1016/S0022-3999(02)00572-X
- Bronte-Tinkew, J., Carrano, J., Horowitz, A., & Kimukawa, A. (2008). Involvement among resident fathers and links to infant cognitive outcomes. *Journal of Family Issues*, 29, 1211-1244. doi: 10.1177/0192513X08318145
- Brosig, C. L., Whitstone, B. N., Frommelt, M. A., Frisbee, S. J., & Leuthner, S. R. (2007). Psychological distress in parents of children with severe congenital heart disease: The impact of prenatal versus postnatal diagnosis. *Journal of Perinatology*, 27, 687-692. doi: 10.1038/sj.jp.7211807
- Canavarro, M. C. (1999). *Relações afectivas e saúde mental*. Coimbra: Quarteto Editora.
- Canavarro, M. C. (2001). Gravidez e maternidade: Representações e tarefas de desenvolvimento. In M. C. Canavarro (Ed.), *Psicologia da gravidez e da maternidade* (pp. 17-51). Coimbra: Quarteto Editora.
- Canavarro, M. C. (2007). Inventário de sintomas psicopatológicos - BSI: Uma revisão crítica dos estudos realizados em Portugal. In M. R. Simões, M. Macahado, M. Gonçalves, & L. S. Almeida (Eds.), *Avaliação psicológica: Instrumentos validados para a população portuguesa* (Vol. III, pp. 305-330). Coimbra: Quarteto Editora.

- Canavarro, M. C. (2009). *Uma perspectiva desenvolvimentista e ecológica sobre a adaptação na transição para a maternidade*. Coimbra: Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra.
- Canavarro, M. C., Dias, P., & Lima, V. (2006). A avaliação da vinculação do adulto: Uma revisão crítica a propósito da aplicação da Adult Attachment Scale-R (AAS-R) na população portuguesa. *Psicologia*, 20(1), 155-187.
- Canavarro, M. C., Nazaré, B., & Pereira, M. (2011). *Validity study of the Portuguese version of BSI 18: Brief Symptom Inventory 18*. Manuscrito não publicado.
- Canavarro, M. C., Vaz-Serra, A., Simões, M. R., Rijo, D., Pereira, M., Gameiro, S., . . . Paredes, T. (2009). Development and general psychometric properties of the Portuguese from Portugal version of the World Health Organization quality of life assessment (WHOQOL-100). *International Journal of Behavioral Medicine*, 16, 116-124. doi: 10.1007/s12529-008-9024-2
- Carey, L., Nicholson, B., & Fox, R. (2002). Maternal factors related to parenting young children with congenital heart disease. *Journal of Pediatric Nursing*, 17(3), 174-183. doi: 10.1053/jpdn.2002.124111
- Carolan, M., & Hodnett, E. (2009). Discovery of soft markers on fetal ultrasound: Maternal implications. *Midwifery*, 25, 654-664. doi: 10.1016/j.midw.2007.11.002
- Carona, C., Pereira, M., Moreira, H., Silva, N., & Canavarro, M. C. (in press). The disability paradox revisited: Quality of life and family caregiving in pediatric cerebral palsy. *Journal of Child and Family Studies*. doi: 10.1007/s10826-012-9659-0
- Carter, A. S., Marakovitz, S. E., & Sparrow, S. S. (2006). Comprehensive psychological assessment: A developmental psychopathology approach for clinical and applied research. In D. Cicchetti, & D. Cohen (Eds.), *Developmental Psychopathology: Volume 1 - Theory and Method* (pp. 181-210). New Jersey: John Wiley & Sons.
- Catlett, A., Miles, M., & Holditch-Davis, D. (1994). Maternal perception of illness severity in premature infants. *Neonatal Network*, 13, 45-49.
- Chaplin, J. P., Schwitzer, R., & Perkoulidis, S. A. (2005). Experiences of prenatal diagnosis of spina bifida or hydrocephalus in parents who decide to continue with their pregnancy. *Journal of Genetic Counseling*, 14(2), 151-162. doi: 10.1007/s10897-005-0488-9
- Chen, C., Jeruss, S., Terrin, N., Tighiouart, H., Wilson, J., & Parsons, S. (2007). Impact on family of survivors of congenital diaphragmatic hernia repair: A pilot study. *Journal of Pediatric Surgery*, 42(11), 1845-1852. doi: 10.1016/j.pedsurg.2007.07.010
- Cicchetti, D. (1993). Developmental psychopathology: Reactions, reflections, projections. *Developmental Review*, 13, 471-502. doi:10.1006/drev.1993.1021
- Cicchetti, D. (2006). Development and Psychopathology. In D. Cicchetti, & D. Cohen (Eds.), *Developmental Psychopathology: Volume 1 - Theory and Method* (pp. 1-23). New Jersey: John Wiley & Sons, Inc.

- Cicchetti, D. (2011). Developmental psychopathology. In R. M. Lerner, A. M. Freund, & M. E. Lamb (Eds.), *Lifespan Development. Vol. 2* (pp. 511-589). New Jersey: Wiley & Sons.
- Clark, S., & Miles, M. (1999). Conflicting responses: The experiences of fathers of infants diagnosed with severe congenital heart disease. *Journal of the Society of Pediatric Nurses, 4*(1), 7-14. doi: 0.1111/j.1744-6155.1999.tb00075.x
- Cohen, J. (1992). A power prime. *Psychological Bulletin, 112*(1), 155-159. doi:10.1037/0033-2909.112.1.155
- Collins, N. (2008). Adult Attachment Scale instrument and scoring. Retrieved January 12, 2012 from Open Psych Assessment: <http://www.openpsychassessment.org/standard-measures/general-social-psychology-instruments/nancy-collins-adult-attachment-scale/>
- Collins, N., & Read, S. (1990). Adult attachment relationships, working models and relationship quality in dating couples. *Journal of Personality and Social Psychology, 58*, 644-683. doi: 10.1037/0022-3514.58.4.644
- Condon, J., Boyce, P., & Corkindale, C. (2004). The first-time fathers study: A prospective study of the mental health and well-being of men during the transition to parenthood. *Australian and New Zealand Journal of Psychiatry, 38*, 56-64. doi: 10.1111/j.1440-1614.2004.01298.x
- Connor, J. A., Kline, N., Mott, S., Harris, S., & Jenkins, K. (2010). The meaning of cost for families of children with congenital heart disease. *Journal of Pediatric Health Care, 24*(5), 318-325. doi: 10.1016/j.pedhc.2009.09.002
- Cook, W., & Kenny, D. (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
- Cowan, C. P., & Cowan, P. A. (1992). *When partners become parents: The big life change for couples*. New York: Basic Books.
- Crowley, L. (2010). *An introduction to human disease: Pathology and pathophysiology correlations* (8th ed.). Sudbury: Jones and Bartlett Publishers, LLC.
- Cummings, E., Davies, P., & Campbell, S. (2000). *Developmental Psychopathology and Family Process: Theory, Research and Clinical Implications*. New York: Guilford Press.
- Czeizel, A. (2005). Birth defects are preventable. *International Journal of Medical Sciences, 2*(3), 91-92. doi: 10.7150/ijms.2.91
- Dale, M., Solberg, O., Holmstrom, H., Landolt, M., Eskedal, L., & Vollrath, M. (2012). Mothers of infants with congenital heart defects: Well-being from pregnancy through the child's first six months. *Quality of life research, 21*(1), 115-122. doi: 10.1007/s11136-011-9920-9
- Darke, P., & Goldberg, S. (1994). Father-infant interaction and parent stress with healthy and medically compromised infants. *Infant Behavior & Development, 17*(1), 3-14. doi: 10.1016/0163-6383(94)90017-5
- Dastgiri, S., Gilmour, W. H., & Stone, D. H. (2003). Survival of children born with congenital anomalies. *Archives of Disease in Childhood, 88*, 391-394. doi: 10.1136/adc.88.5.391

- Davis, C., Brown, R., Bakeman, R., & Campbell, R. (1998). Psychological adaptation and adjustment of mothers of children with congenital heart disease: Stress, coping, and family functioning. *Journal of Pediatric Psychology, 23*(4), 219-228. doi: 10.1093/jpepsy/23.4.219
- Davis, H. (1993). *Parents of children with chronic illness or disability*. Leicester: British Psychological Society.
- De Rouck, S., & Leys, M. (2009). Information needs of parents of children admitted to a neonatal intensive care unit: A review of the literature (1990-2008). *Patient Education and Counseling, 76*, 159-173. doi: 10.1016/j.pec.2009.01.014
- Deave, T., Johnson, D., & Ingram, J. (2008). Transition to parenthood: The needs of parents in pregnancy in early parenthood. *BMC Pregnancy and Childbirth, 8*, 30. doi: 10.1186/1471-2393-8-30
- Demo, D., & Cox, M. J. (2000). Families with young children: A review of research in the 1990s. *Journal of Marriage and the Family, 62*, 867-895. doi: 10.1111/j.1741-3737.2000.00876.x
- Derogatis, L. R. (2000). *The Brief Symptom Inventory-18 (BSI-18): Administration, scoring and procedures manual*. Minneapolis: National Computer Systems.
- deRoos-Cassini, T., Mancini, A., Rusch, M., & Bonanno, G. (2010). Psychopathology and resilience following traumatic injury: A latent growth mixture model analysis. *Rehabilitation Psychology, 55*(1), 1-11. doi: 10.1073/a0018601
- Díaz-Herrero, A., Nuez, A., Pina, J., Pérez-López, J., & Martínez-Fuentes, M. (2010). Estructura factorial y consistencia interna de la versión española del Parenting Stress Index-Short Form. *Psicothema, 22*, 1033-1038.
- Direção Geral de Saúde. (2001). *Saúde Materno-Infantil: Rede de referência materno-infantil*. Lisboa: Direção Geral da Saúde.
- Doherty, N., McCusker, C., Molloy, B., Mulholland, C., Rooney, N., Craig, B., . . . Casey, F. (2009). Predictors of psychological functioning in mothers and fathers of infants born with severe congenital heart disease. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 27*(4), 390-400. doi: 10.1080/02646830903190920
- Drotar, D., Baskiewicz, A., Irvin, N., Kennell, J., & Klaus, M. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: A hypothetical model. *Pediatrics, 56*(5), 710-717.
- Dunst, C. J., Jenkins, V., & Trivette, C. M. (1984). Family Support Scale: Reliability and validity. *Journal of Individual, Family and Community Wellness, 1*, 45-52.
- Ekelin, M., Svalenius, E., & Dykes, A. (2008). Developing the PEER-U scale to measure parents' expectations, experiences and reactions to routine ultrasound examinations during pregnancy. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 26*(3), 211-228. doi: 10.1080/02646830701691368
- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2009a). *EUROCAT guide 1.3 and reference documents: Instructions for the registration and surveillance of congenital anomalies*. Newtonabby: EUROCAT Central Registry.

- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2009b). *EUROCAT Statistical Monitoring Report - 2009: Executive Summary*. Newtownabbey: EUROCAT Central Registry.
- European Surveillance of Congenital Anomalies. (2012). *Prevalence Tables*. Retrieved May 26, 2012, from <http://www.eurocat-network.eu/accessprevalencedata/prevalencetables>.
- Euro-Peristat Project. (2008). *European perinatal health report: Better statistics for better health for pregnant women and their babies*. Paris: Euro-Peristat Project.
- Fatheringham, J., Skelton, M., & Hoddinott, B. (1972). The effects on the families of the presence of a mentally retarded child. *Canadian Psychiatric Association Journal, 17*, 283-289.
- Faugli, A., Emblem, R., Bjornland, K., & Diseth, T. (2009). Mental health in infants with esophageal atresia. *Infant Mental Health Journal, 30*(1), 40-56. doi: 10.1002/imhj.20202
- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A. G., & Buchner, A. (2007). G*Power3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods, 39*, 175-191.
- Feeney, J. (2003). Adult attachment, involvement in infant care, and adjustment to new parenthood. *Journal of Systemic Therapies, 22*(2), 16-30. doi: 10.1521/jsyt.22.2.16.23344
- Feldman, R., Sussman, A. L., & Zigler, E. (2004). Parental leave and work adaptation at the transition to parenthood: Individual, marital and social correlates. *Journal of Applied Developmental Psychology, 25*(4), 459-479. doi: 10.1016/j.appdev.2004.06.004
- Ferguson, P. (2002). A place in the family: An historical interpretation of research on parental reactions to having a child with disability. *The Journal of Special Education, 36*(3), 124-130. doi: 10.1177/00224669020360030201
- Field, A. (2009). *Discovering statistics using SPSS* (3rd ed.). London: SAGE.
- Figueiredo, B., & Conde, A. (2011). Anxiety and depression in women and men from early pregnancy to 3-months postpartum. *Archives of Women's Mental Health, 14*, 247-255. doi: 10.1007/s00737-011-0217-3
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011a). *Baby's diagnosis of congenital anomaly during the perinatal period: Determinants of parental adjustment*. Poster apresentado na 25th European Health Psychology Conference, Creta, Grécia.
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011b). *Informação em saúde: O papel da informação na adaptação parental a um diagnóstico pré- ou pós-natal de anomalia congénita*. Poster apresentado na II Reunião Científica da Sociedade Portuguesa de Obstetrícia e Medicina Materno-Fetal, Coimbra.
- Fonseca, A., Nazaré, B., & Canavarro, M. C. (2011c). *Poderão as reacções emocionais dos pais à notícia do diagnóstico de anomalia congénita no bebé ajudar os profissionais de saúde a sinalizar dificuldades emocionais futuras?* Poster apresentado na II Reunião Científica da Sociedade Portuguesa de Obstetrícia e Medicina Materno-Fetal, Coimbra.
- Franck, L. S., Mcquillan, A., Wray, J., Grocott, M., & Goldman, A. (2010). Parent stress levels during children's hospital recovery after congenital heart surgery. *Pediatric Cardiology, 31*, 961-968. doi: 10.1007/s00246-010-9726-5

- Freeman, C. (2006). *Relative contributions of mastery, maternal affective states, and childhood difficulty to maternal self-efficacy*. Dissertação de Doutorado não publicada. Reno: University of Nevada, Reno.
- Gameiro, S., Boivin, J., Canavarro, M. C., Moura-Ramos, M., & Soares, I. (2010). Social nesting: Changes in social network and support across the transition to parenthood in couples that conceived spontaneously or through assisted reproductive technologies. *Journal of Family Psychology, 24*(2), 175-187. doi: 10.1037/a0019101
- Gerstein, E. D., Crnic, K. A., Blacher, J., & Baker, B. L. (2009). Resilience and the course of daily parenting stress in families of young children with intellectual disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research, 53*, 981-997. doi: 10.1111/j.1365-2788.2009.01220.x
- Gischler, S. J., & Mazer, P. (2008). *Children with anatomical congenital anomalies: A portrait follow-up over five years*. Rotterdam: Erasmus Universiteit Rotterdam.
- Graungaard, A. H., & Skov, L. (2007). Why do we need a diagnosis? A qualitative study of parents' experiences, coping and needs, when the newborn child is severely disabled. *Child: Care, Health & Development, 33*(3), 296-307. doi: 10.1111/j.1365-2214.2006.00666.x
- Gravidia-Payne, S., & Stoneman, Z. (2006). Marital adjustment of parents of young children with disabilities: Associations with daily hassles and problem-focused coping. *American Journal of Mental Retardation, 3*, 1-14. doi: 10.1352/0895-8017(2006)111
- Gray, D. E. (2003). Gender and coping: The parents of children with high functioning autism. *Social Science & Medicine, 56*(3), 631-642. doi: 10.1016/S0277-9536(02)00059-X
- Green, S. (2007). "We're tired, not sad": Benefits and burdens of mothering a child with a disability. *Social Science & Medicine, 64*, 150-163. doi: 10.1016/j.socscimed.2006.08.025
- Griffin, D., & Bartholomew, K. (1994). Models of the self and other: Fundamental dimensions underlying measures of adult attachment. *Journal of Personality and Social Psychology, 67*, 430-445. doi: 10.1037/0022-3514.67.3.430
- Guralnick, M. J., Hammond, M. A., Neville, B., & Connor, R. T. (2008). The relationship between sources and functions of social support and dimensions of child- and parent-related stress. *Journal of Intellectual Disability Research, 52*, 1138-1154. doi: 10.1111/j.1365-2788.2008.01073.x
- Guzmán, M. E. H., Fernández, R. R., & Herrera, J. N. (2004). *Malformaciones congénitas: Diagnóstico y manejo neonatal*. Santiago de Chile: Editorial Universitaria.
- Haber, M., Cohen, J., Lucas, T., & Baltes, B. (2007). The relationship between self-reported received and perceived social support: A meta-analytic review. *American Journal of Community Psychology, 39*(1), 133-144. doi: 10.1007/s10464-007-9100-9
- Haskett, M., Ahern, L. S., Ward, C., & Allaire, J. C. (2006). Factor structure and validity of Parenting Stress Index-Short Form. *Journal of Clinical and Child Adolescent Psychology, 35*, 302-312. doi: 10.1207/s15374424jccp3502_14

- Hasnat, M., & Graves, P. (2000). Disclosure of developmental disability: A study of parent satisfaction and the determinants of satisfaction. *Journal of Paediatrics and Child Health*, *36*, 32-35. doi: 10.1046/j.1440-1754.2000.00463.x
- Hastings, R. P. (2003). Child behaviour problems and partner mental health as correlates of stress in mothers and fathers of children with autism. *Journal of Intellectual Disability Research*, *47*, 231-237. doi: 10.1046/j.1365-2788.2003.00485.x
- Hastings, R. P., Beck, A., & Hill, C. (2005). Positive contributions made by children with an intellectual disability in the family: Mothers' and fathers' perceptions. *Journal of Intellectual Disabilities*, *9*(2), 155-165. doi: 10.1177/1744629505053930
- Hess, C., Teti, D., & Hussey-Gardner, B. (2004). Self-efficacy and parenting of high-risk infants: The moderating role of parent knowledge of infant development. *Applied Developmental Psychology*, *25*, 423-437. doi: 10.1016/j.appdev.2004.06.002
- Hildingsson, I., & Sjöling, M. (2011). Fathers' experiences of support during pregnancy and the first year following childbirth: Findings from a Swedish regional survey. *Journal of Men's Health*, *8*(4), 258-266. doi: 10.1016/j.jomh.2011.03.007
- Howard, E. (2006). Family-centered care in the context of fetal abnormality. *Journal of Perinatal & Neonatal Nursing*, *20*(3), 237-242.
- Huang, Y. P., Chen, S. L., & Tsai, S. W. (2012). Father's experiences of involvement in the daily care of their child with developmental disability in a Chinese context. *Journal of Clinical Nursing*, *21*, 3287-3296. doi: 10.1111/j.1365-2702.2012.04142.x
- Hudson, D., Elek, S., & Fleck, M. (2001). First-time mothers' and fathers' transition to parenthood: Infant care self-efficacy, parenting satisfaction, and infant sex. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, *24*, 31-43. doi: 10.1080/014608601300035580
- Hummelinck, A., & Pollock, K. (2006). Parents' information needs about the treatment of their chronically ill child: A qualitative study. *Patient Education and Counseling*, *62*(2), 228-234. doi: 10.1016/j.pec.2005.07.006
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology*, *24*(6), 515-520. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge. (2011). *Registo Nacional de Anomalias Congénitas: Relatório de 2008-2010*. Lisboa: Instituto Nacional de Saúde Doutor Ricardo Jorge.
- Jedlicka-Köhler, I., Götz, M., & Eichler, I. (1996). Parents' recollection of the initial communication of the diagnosis of cystic fibrosis. *Pediatrics*, *97*, 204-209.
- Johansson, B., & Ringsberg, K. C. (2004). Parents' experiences of having a child with cleft lip and palate. *Journal of Advanced Nursing*, *47*(2), 165-173. doi: 10.1111/j.1365-2648.2004.03075.x
- Joiner, T. (2002). Depression in its interpersonal context. In I. Gotlib, & C. Hammen (Eds.), *Handbook of depression* (pp. 295-313). New York: Guilford Press.

- Jomeen, J. (2004). The importance of assessing psychological status during pregnancy, childbirth and the postnatal period as a multidimensional construct: A literature review. *Clinical Effectiveness in Nursing*, 8, 143-155. doi: 10.1016/j.cein.2005.02.001
- Jones, S., Statham, H., & Solomou, W. (2005). When expectant mothers know their baby has a fetal abnormality: Exploring a crisis of motherhood through qualitative data-mining. *Journal of Social Work Research and Evaluation*, 62(2), 195-206.
- Jones, T., & Prinz, R. (2005). Potential roles of parental self-efficacy in parent and child adjustment: A review. *Clinical Psychology Review*, 25, 341-363. doi: 10.1016/j.cpr.2004.12.004
- Kaasen, A., Helbig, A., Malt, U., Naes, T., Skari, H., & Haugen, G. (2010). Acute maternal social dysfunction, health perception and psychological distress after ultrasonographic detection of a fetal structural anomaly. *British Journal of Obstetrics and Gynecology*, 117, 1127-1138. doi: 10.1111/j.1471-0528.2010.02622.x
- Kalmijn, M. (2012). Longitudinal analyses of the effects of age, marriage, and parenthood on social contacts and support. *Advances in Life Course Research*, 17, 177-190. doi: 10.1016/j.alcr.2012.08.002
- Katz-Wise, S., Priess, H., & Hyde, J. (2010). Gender-role attitudes and behavior across the transition to parenthood. *Developmental Psychology*, 46(1), 18-28. doi: 10.1037/a0017820
- Kausar, S., Jevne, R., & Sobsey, D. (2003). Hope in families of children with developmental disabilities. *Journal on Developmental Disabilities*, 10(2), 35-45.
- Kazak, A. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 57(1), 25-30. doi: 10.1037/0022-006X.57.1.25
- Kearney, P., & Griffin, T. (2001). Between joy and sorrow: Being a parent of a child with developmental disability. *Journal of Advanced Nursing*, 34(5), 582-592. doi: 10.1046/j.1365-2648.2001.01787.x
- Kemp, J., Davenport, M., & Pernet, A. (1998). Antenatally diagnosed surgical anomalies: The psychological effect of parental antenatal counseling. *Journal of Pediatric Surgery*, 33(9), 1376-1379. doi: 10.1016/S0022-3468(98)90011-2
- Kenny, D., Kashy, D. A., & Cook, W. (2006). *Dyadic data analysis*. New York: Cambridge University Press.
- Kerr, S., & McIntosh, J. (1998). Disclosure of disability: Exploring the perspective of parents. *Midwifery*, 14, 225-232. doi: 10.1016/S0266-6138(98)90094-8
- Kerr, S., & McIntosh, J. (2000). Coping when a child has a disability: Exploring the impact of parent-to-parent support. *Child: Care, Health & Development*, 26(4), 309-322. doi: 10.1046/j.1365-2214.2000.00149.x
- Kersh, J., Hedvat, T., Hauser-Cram, P., & Warfield, M. E. (2006). The contribution of marital quality to the well-being of parents of children with developmental disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(12), 883-893. doi: 10.1111/j.1365-2788.2006.00906.x

- King, G. A., Zwaigenbaum, L., King, S., Baxter, D., Rosenbaum, P., & Bates, A. (2006). A qualitative investigation of changes in the belief systems of families of children with autism or Down syndrome. *Child: Care, Health & Development, 32*(3), 353-369. Doi: 10.1111/j.1365-2214.2006.00571.x
- Kowalcek, I., Mühlhoff, A., Bachman, S., & Gembruch, U. (2002). Depressive reactions and stress related to prenatal medicine procedures. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology, 19*, 18-23. doi: 10.1046/j.0960-7692.2001.00551.x
- Krahn, G. L., Hallum, A., & Kime, C. (1993). Are there good ways to give "bad news"? . *Pediatrics, 91*(3), 578-582.
- Kramer, F., Baethge, C., Sinikovic, B., & Schliephaje, H. (2007). An analysis of quality of life in 130 families having small children with cleft lip/palate using the Impact on Family Scale. *International Journal of Oral Maxillofacial Surgery, 36*, 1146-1152. doi: 10.1016/j.ijom.2007.06.009
- Kronenberger, W. G., & Thompson, R. J. (1992). Medical stress, appraised stress, and the psychological adjustment of mothers of children with myelomeningocele. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics, 13*(6), 405-411. doi: 10.1097/00004703-199212000-00004
- Laing, S., McMahon, C., Ungerer, J., Taylor, A., Badawi, N., & Spence, K. (2010). Mother-child interaction and child developmental capacities in toddlers with major birth defects requiring newborn surgery. *Early Human Development, 86*, 793-800. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2010.08.025
- Laing, S., Walker, K., Ungerer, J., Badawi, N., & Spence, K. (2011). Early development of children with major birth defects requiring newborn surgery. *Journal of Paediatrics and Child Health, 47*, 140-147. doi: 10.1111/j.1440-1754.2010.01902.x
- Lalor, J., & Begley, C. (2006). Fetal anomaly screening: What do women want to know? *Journal of Advanced Nursing, 55*(1), 11-19. doi: 10.1111/j.1365-2648.2006.03884.x
- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2008). A grounded theory study of information preference and coping styles following antenatal diagnosis of foetal abnormality. *Journal of Advanced Nursing, 64*(2), 185-194. doi: 10.1111/j.1365-2648.2008.04778.x
- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2009). Recasting hope: A process of adaptation following fetal anomaly. *Social Science & Medicine, 68*, 462-472. doi: 10.1016/j.socscimed.2008.09.069
- Lalor, J., Devane, D., & Begley, C. (2007). Unexpected diagnosis of fetal abnormality: Women's encounters with caregivers. *Birth, 34*(1), 80-88. doi: 10.1111/j.1523-536X.2006.00148.x
- Lamb, M. E., Pleck, J., Charnov, E. L., & Levine, J. A. (1987). A biosocial perspective on paternal behavior and involvement. In J. B. Lancaster, J. Altman, A. Rossi, & L. R. Sherrod (Eds.), *Parenting across the lifespan: Biosocial perspective* (pp. 111-142). New York: Aldine de Gruyter.
- Larson, E. (1998). Reframing the meaning of disability to families: The embrace of paradox. *Social Science & Medicine, 47*(7), 865-875.

- Larson, E. (2010). Psychological well-being and meaning-making when caregiving for children with disabilities: Growth through difficult times or sinking inward. *OTJR: Occupation, Participation, Health, 30*, 78-86. doi: 10.3928/15394492-20100325-03
- Lavee, Y. (in press). Stress processes in families and couples. In G. W. Peterson, & K. R. Bush (Eds.), *Handbook of marriage and the family* (3rd ed.). New York: Springer.
- Lavee, Y., McCubbin, H., & Patterson, J. (1985). The Double ABCX Model of Family Stress and Adaptation: An empirical test by analysis of structural equations with latent variables. *Journal of Marriage and Family, 47*(4), 811-825.
- Lawoko, S., & Soares, J. (2002). Distress and hopelessness among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases, and parents of healthy children. *Journal of Psychosomatic Research, 52*, 193-208. doi: 10.1016/S0022-3999(02)00301-X
- Lawoko, S., & Soares, J. (2003a). Quality of life among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Quality of life research, 12*(6), 655-666. doi: 10.1023/A:1025114331419
- Lawoko, S., & Soares, J. (2003b). Social support among parents of children with congenital heart disease, parents of children with other diseases and parents of healthy children. *Scandinavian Journal of Occupational Therapy, 10*, 177-187. doi: 10.1080/11038120310016779
- Lazarus, R., & Folkman, S. (1984). *Stress, Appraisal, and Coping*. New York: Springer Publishing Company.
- Leahy-Warren, P., & McCarthy, G. (2011). Maternal parental self-efficacy in the postpartum period. *Midwifery, 27*, 802-810. doi: 10.1016/j.midw.2010.07.008
- Lefkowitz, D. S., Baxt, C., & Evans, J. R. (2010). Prevalence and correlates of posttraumatic stress and postpartum depression in parents of infants in the neonatal intensive care unit (NICU). *Journal of Clinical Psychology in Medical Settings, 17*, 230-237. doi: 10.1007/s10880-010-9202-7
- Leigh, B., & Milgrom, J. (2008). Risk factors for antenatal depression, postnatal depression and parenting stress. *BMC Psychiatry, 8*, 24. doi: 10.1186/1471-244x-8-24
- Leithner, K., Maar, A., Fischer-Kern, M., Hilger, E., Löffler-Stastka, H., & Ponocny-Seliger, E. (2004). Affective state of women following a prenatal diagnosis: Predictors of a negative psychological outcome. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology, 23*, 240-246. doi: 10.1002/uog.978
- Levy-Shiff, R. (1999). Fathers' cognitive appraisals, coping strategies, and support resources as correlates of adjustment to parenthood. *Journal of Family Psychology, 13*(4), 554-567. doi: 10.1037/0893-3200.13.4.554
- Lipinski, S., Lipinski, M., Biesecker, L., & Biesecker, B. (2006). Uncertainty and perceived personal control among parents of children with rare chromosome conditions: The role of genetic

- counseling. *American Journal of Medical Genetics Part C (Seminars in Medical Genetics)*, *142C*, 232-240. doi: 10.1002/ajmg.c
- Lobo Antunes, N. (2009). *Mal-entendidos*. Lisboa: Verso de Kapa.
- Locock, L., & Alexander, J. (2006). Just a bystander? Men's place in the process of fetal screening and diagnosis. *Social Science & Medicine*, *62*, 1349-1359. doi: 10.1016/j.socscimed.2005.08.011
- Luthar, S., & Cicchetti, D. (2000). The construct of resilience: Implications for interventions and social policies. *Developmental Psychopathology*, *12*(4), 857-885.
- Mak, W., & Ho, G. (2007). Caregiving perceptions of chinese mothers of children with intellectual disability in Hong Kong. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, *20*, 145-156. doi: 10.1111/j.1468-3148.2006.00309.x
- Mander, R. (2004). *Men and maternity*. London: Routledge.
- Marshak, L. E., & Prezant, F. (2007). *Married with special-needs children: A couples' guide to keeping connected*. Bethesda: Woodbine House.
- Marshak, L. E., Seligman, M., & Prezant, F. (1999). *Disability and the family life cycle: Recognizing and treating developmental challenges*. New York: Basic Books.
- Masten, A., Burt, K., & Coatsworth, J. D. (2006). Competence and psychopathology in development. In D. Cicchetti, & D. Cohen (Eds.), *Developmental Psychopathology: Volume 3 – Risk, disorder, and adaptation* (pp. 696-738). New Jersey: John Wiley & Sons, Inc.
- Mazer, P., Gischler, S. J., Koot, H. M., Tibboel, D., Dijk, M., & Duivenvoorden, H. J. (2008). Impact of a Child with Congenital Anomalies on Parents (ICCAP) questionnaire: A psychometric analysis. *Health and Quality of Life Outcomes*, *6*, 102. doi: 10.1186/1477-7525-6-102
- McCoyd, J., Akincigil, A., & Paek, E. (2010). Pediatric disability and caregiver separation. *Journal of Family Social Work*, *13*, 251-268. doi: 10.1080/10522151003716353
- McCubbin, M., & Patterson, J. (1983). The family stress process: The Double ABC-X Model of adjustment and adaptation. *Marriage and Family Review*, *6*, 7-37. doi: 10.1300/J002v06n01_02
- McKim, E., Kenner, C., Flandermeyer, A., Spangler, L., Darling-Thornburg, & Spiering, K. (1995). The transition to home for mothers of healthy and initially ill newborn babies. *Midwifery*, *11*(184-194). doi: 10.1016/0266-6138(95)90003-9
- McLean, S. D. (2005). Congenital anomalies. In M. MacDonald, M. Seshia, & M. D. Mullett (Eds.), *Avery's neonatology: Pathophysiology and management of the newborn* (6th ed., pp. 892-913). Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins.
- Mendes, D. (2007). Lived experience by first-time parents in the postpartum. *Birth*, *15*, 119-125.
- Mert, E., Hallioglu, O., & Ankarali-Çamdeviren, H. (2008). Turkish version of the Parenting Stress Index Short Form: A psychometric study. *Turkiye Klinikleri Journal of Medical Sciences*, *28*, 291-296.

- Messias, D., Gilliss, C., Sparacino, P., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine, 13*(3/4), 367-377. doi: 10.1037/h0089280
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1995). Appraisal and coping with a real-life stressful situation: The contribution of attachment styles. *Personality and Social Psychology Bulletin, 69*, 1203-1215. doi: 10.1177/0146167295214011
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1998). The relationship between adult attachment styles and emotional and cognitive reactions to stressful events. In J. A. Simpson, & W. S. Rholes (Eds.), *Attachment theory and close relationships* (pp. 143-165). New York: Guilford Press.
- Miles, M., Holditch-Davis, D., Burchinal, M., & Brunssen, S. (2011). Maternal role attainment with medically fragile infants: Part 1 - Measurement and correlates during the first year of life. *Research in Nursing & Health, 34*, 20-34. doi: 10.1002/nur.20419
- Milgrom, J., Ericksen, J., McCarthy, R., & Gemmill, A. (2006). Stressful impact of depression on early mother-infant relations. *Stress & Health, 22*(4), 229-238. doi: 10.1002/smi.1101
- Milunsky, A., & Milunsky, J. M. (2010). *Genetic disorders and the fetus: Diagnosis, prevention and treatment*. Oxford: Willey-Blackwell.
- Mitchell, L. (2004). Women's experiences of unexpected ultrasound findings. *Journal of Midwifery & Women's Health, 49*(3), 228-234. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Montirosso, R., Fedeli, C., Murray, L., Morandi, F., Brusati, R., Perego, G., & Borgatti, R. (2012). The role of negative maternal affective states and infant temperament in early interactions between infants with cleft lip and their mothers. *Journal of Pediatric Psychology, 37*(2), 241-250. doi: 10.1093/jpepsy/jsr089
- Moura-Ramos, M. (2006). *Adaptação materna e paterna ao nascimento de um filho: Percursos e contextos de influência*. Dissertação de Mestrado não publicada. Coimbra: Universidade de Coimbra.
- Nazaré, B., Fonseca, A., & Canavarro, M. C. (2011). Avaliação da confiança parental: Versão portuguesa da Maternal Confidence Questionnaire. In A. S. Ferreira, A. Verhaeghe, D. R. Silva, L. S. Almeida, R. Lima, & S. Fraga (Eds.), *Atas do VIII Congresso Iberoamericano de Avaliação Psicológica/XV Conferência Internacional de Avaliação Psicológica: Formas e Contextos* (pp. 1949-1960). Lisboa: Sociedade Portuguesa de Psicologia.
- Nusbaum, R., Grubs, R., Losee, J., Weidman, C., Ford, M., & Marazita, M. (2008). A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *Journal of Genetic Counseling, 17*, 336-350. doi: 10.1007/s10897-008-9152-5
- Öhman, S., & Waldenström, U. (2008). Second-trimester routine ultrasound screening: Expectations and experiences in a nationwide Swedish sample. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology, 32*, 15-22. doi: 10.1002/uog.5273
- Olsson, M. B., & Hwang, C. P. (2006). Well-being, involvement in paid work and division of child-care in parents of children with intellectual disabilities in Sweden. *Journal of Intellectual Disability Research, 50*(12), 963-969. doi: 10.1111/j.1365-2788.2006.00930.x

- Owens, J. (2008). Parents' experiences of feeding a baby with cleft lip and palate. *British Journal of Midwifery*, 16(12), 778-784.
- Pain, H. (1999). Coping with a child with disabilities from the parents' perspective: The function of information. *Child: Care, Health & Development*, 25(4), 299-312. doi: 10.1046/j.1365-2214.1999.00132.x
- Peacock, J., & Peacock, P. (2011). *Oxford Handbook of Medical Statistics*. Oxford: Oxford University Press.
- Pelchat, D., Lefebvre, H. (2005). *Apprendre ensemble: Le PRIFARM Programme d'intervention interdisciplinaire et familiale*. Montréal: Chenelière.
- Pelchat, D., Ricard, N., Bouchard, J.-M., Perreault, M., Saucier, J.-F., Berthiaume, M., & Bisson, J. (1999). Adaptation of parents in relation to their 6-month-old infant's type of disability. *Child: Care, Health and Development*, 25(4), 377-397. doi: 10.1046/j.1365-2214.1999.00107.x
- Perren, S., Wyl, A., Bürgin, D., Simoni, H., & Klitzing, K. (2005). Depressive symptoms and psychological stress across the transition to parenthood: Associations with parental psychopathology and child difficulty. *Journal of Psychosomatic Obstetrics & Gynecology*, 26(3), 173-183. doi: 10.1080/01674820400028407
- Petrucelli, N., Walker, M., & Schorry, E. (1998). Continuation of pregnancy following the diagnosis of a fetal sex chromosome abnormality. *Journal of Genetic Counseling*, 7(5), 410-415. doi: 10.1023/A:1022828715158
- Pezeshki, M. Z., Zeighami, B., & Miller, W. B. (2005). Measuring the childbearing motivation of couples referred to the Shiraz Health Center for premarital examinations. *Journal of Biosocial Science*, 37, 37-53.
- Pinelli, J., Saigal, S., Wu, Y. W., Cunningham, C., DiCenso, A., Steele, S., . . . Turner, S. (2008). Patterns of change in family functioning, resources, coping and parental depression in mothers and fathers of sick newborns over the first year of life. *Journal of Neonatal Nursing*, 14, 156-165. doi: 10.1016/j.jnn.2008.03.015
- Plantin, L., Olukoya, A., & Ny, P. (2011). Positive health outcomes of fathers' involvement in pregnancy and childbirth paternal support: A scope study literature review. *Fathering*, 9(1), 87-102. doi: 10.3149/fth.0901.87
- Pleck, J. (1997). Paternal involvement: Levels, sources and consequences. In M. E. Lamb (Ed.), *The role of the father in child development* (pp. 66-103). New York: John Wiley & Sons.
- Poehlmann, J., Clements, M., Abbeduto, L., & Farsad, V. (2005). Family experiences associated with a child's diagnosis of Fragile X or Down Syndrome: Evidence for disruption and resilience. *Mental Retardation*, 43, 255-267. doi: 10.1352/0047-6765(2005)43[255:FEAWAC]2.0.CO;2
- Pope, A., Tillman, K., & Snyder, H. (2005). Parenting stress in infancy and psychosocial adjustment in toddlerhood: A longitudinal study of children with craniofacial anomalies. *The Cleft Palate - Craniofacial Journal*, 42(5), 556-559. doi: 10.1597/04-066R.1

- Povee, K., Roberts, L., Bourke, J., & Leonard, H. (2012). Family functioning in families with a child with Down Syndrome: A mixed methods approach. *Journal of Intellectual Disability Research, 56*(10), 961-973. doi: 10.1111/j.1365-2788.2012.01561.x
- Premberg, A., Hellström, A. L., & Berg, M. (2008). Experiences of the first year as father. *Scandinavian Journal of Caring Sciences, 22*(1), 56-63. doi: 10.1111/j.1471-6712.2007.00584.x
- Pruthi, G., & Mohta, A. (2010). Psychosocial burden and quality of life in parents of children with anorectal malformation. *Journal of Indian Association of Pediatric Surgery, 15*(1), 15-18. doi: 10.4103/0971-9261.69135
- Rajan, R. (2004). *Ultrasound and color doppler in obstetrics, gynecology & infertility*. Kerala: Indian Academy of Human Reproduction.
- Redshaw, M. (1997). Mothers of babies requiring special care: Attitudes and experiences. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 15*(2), 109-120. doi: 10.1080/02646839708404538
- Regateiro, F. (2007). *Manual de Genética Médica*. Coimbra: Imprensa da Universidade de Coimbra.
- Rehman, U., Gollam, J., & Mortimer, A. (2008). The marital context of depression: Research, limitations and new directions. *Clinical Psychology Review, 28*, 179-198. doi: 10.1016/j.cpr.2007.04.007
- Relvas, A. P. (1996). *O ciclo vital da família: Perspectiva sistémica*. Porto: Edições Afrontamento.
- Rempel, G., Harrison, M., & Williamson, D. (2009). Is "Treat your child normally" helpful advice for parents of survivors of treatment of hypoplastic left heart syndrome? *Cardiology in the Young, 19*, 135-144. doi: 10.1017/S1047951109003485
- Risdal, D., & Singer, G. (2004). Marital adjustment in parents of children with disabilities: A historical review and meta-analysis. *Research & Practice for Persons with Severe Disabilities, 29*(2), 95-103. doi: 10.2511/rpsd.29.2.95
- Rolland, J. S. (1999). Parental illness and disability: A family systems framework. *Journal of Family Therapy, 21*, 242-266. doi: 10.1111/1467-6427.00118
- Rutter, M. (1990). Psychosocial resilience and protective mechanisms. In J. Rolf, A. Masten, D. Cicchetti, K. H. Nuechterlein, & S. Weintraub (Eds.), *Risk and protective factors in the development of psychopathology* (pp. 181-214). Cambridge: Cambridge University Press.
- Rychick, J., Donaghue, D., Levy, S., Fajardo, C., Combs, J., Zhang, X., . . . Diamond, G. (2012). Maternal psychological stress after prenatal diagnosis of congenital heart disease. *The Journal of Pediatrics*. doi: 10.1016/j.jpeds.2012.07.023
- Sadler, T. W. (2009). *Langman's medical embryology*. Maryland: Lippincott Williams & Williams.
- Santos, S. (1998). A família da criança com doença crónica: Abordagem de algumas características. *Análise Psicológica, 16*(1), 65-75.
- Santos, S. (2011). *Versão Portuguesa do Parenting Stress Index (PSI) - Forma Reduzida: Estudo com uma amostra de mães de crianças com idade inferior a 5 anos*. Poster apresentado no VIII Congresso Iberoamericano de Avaliação Psicológica/XV Conferência Internacional de Avaliação Psicológica: Formas e Contextos, Lisboa.

- Schuth, W., Karck, U., Wilhelm, C., & Reisch, S. (1994). Parents' needs after ultrasound diagnosis of a fetal malformation: An empirical deficit analysis. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, *4*, 124-129. doi: 10.1046/j.1469-0705.1994.04020124.x
- Scorgie, K., & Sobsey, D. (2000). Transformational outcomes associated with parenting children who have disabilities. *Mental Retardation*, *38*, 195-206. doi: 10.1352/0047-6765(2000)038<0195:TOAWPC>2.0.CO;2
- Seligman, M., & Darling, R. B. (2007). *Ordinary families, special children: A systems approach to childhood disability* (3rd ed.). New York: The Guilford Press.
- Seltzer, M., Greenberg, J. S., Floyd, F. J., Pettee, Y., & Hong, J. (2001). Life course impacts of parenting a child with a disability. *American Journal of Mental Retardation*, *106*, 265-286.
- Shaver, P., & Mikulincer, M. (2007). Adult attachment strategies and the regulation of emotion. In J. J. Gross (Ed.), *Handbook of emotion regulation* (pp. 446-465). New York: Guilford Press.
- Shields-Poe, D., & Pinelli, J. (1997). Variables associated with parental stress in neonatal intensive care units. *Neonatal Network*, *16*(1), 29-37.
- Silver, E. J., Westbrook, L. E., & Stein, R. E. K. (1998). Relationship of parental psychological distress to consequences of chronic health conditions in children. *Journal of Pediatric Psychology*, *23*(1), 5-15. doi: 10.1093/jpepsy/23.1.5
- Simmerman, S., Blacher, J., & Baker, B. L. (2001). Fathers' and mothers' perceptions of father involvement with young children with a disability. *Journal of Intellectual & Developmental Disability*, *26*, 325-338. doi: 10.1080/13668250120087335
- Simons, C. J. R., Ritchie, S. K., & Mullett, M. D. (1998). Parents' perceptions of medical diagnoses and related issues for their high-risk infants. *Journal of Pediatric Health Care*, *12*, 118-124. doi: 10.1016/S0891-5245(98)90241-3
- Simpson, J. A., Rholes, W. S., Campbell, L., Tran, S., & Wilson, C. (2003). Adult attachment, the transition to parenthood, and depressive symptoms. *Journal of Personality and Social Psychology*, *84*(6), 1172-1187. doi: 10.1037/0022-3514.84.6.1172
- Singer, L., Davillier, M., Bruening, P., Hawkins, S., & Yamashita, T. (1996). Social support, psychological distress and parenting strains in mothers of very low birthweight infants. *Family Relations*, *45*(3), 343-350.
- Skari, H., Malt, U., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, M., . . . Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis*, *26*, 1001-1009. doi: 10.1002/pd.1542
- Skevington, S., Lotfy, M., & O'Connell, K. (2004). The World Health Organization's WHOQOL-Bref quality of life assessment: Psychometric properties and results of the international field trial - A report from the WHOQOL Group. *Quality of life research*, *13*, 299-310. doi: 10.1023/B:QURE.0000018486.91360.00
- Skreden, M., Skari, H., Malt, U., Haugen, G., Pripp, A., Faugli, A., & Emblem, R. (2010). Long-term parental psychological distress among parents of children with a malformation: A

- prospective longitudinal study. *American Journal of Medical Genetics Part A*, *15*, 2193-2202. doi: 10.1002/ajmg.a.33605
- Soares, I. (2000). Introdução à psicopatologia do desenvolvimento: Questões teóricas e de investigação. In I. Soares (Ed.), *Psicopatologia do desenvolvimento: Trajectórias (in)adaptativas ao longo da vida* (pp. 11-43). Coimbra: Quarteto Editora.
- Solberg, O., Dale, M., Holmstrom, H., Eskedal, L., Landolt, M., & Vollrath, M. (2011). Emotional reactivity in infants with congenital heart defects and maternal symptoms of postnatal depression. *Archives of Women's Mental Health*, *14*, 487-492. doi: 10.1007/s00737-011-0243-1
- Sommerseth, E., & Sundby, J. (2010). Women's experiences when ultrasound examinations give unexpected findings in the second trimester. *Women and Birth*, *23*, 111-116. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Speltz, M., Arnsden, G., & Clarren, S. (1990). Effects of craniofacial birth defects on maternal functioning postinfancy. *Journal of Pediatric Psychology*, *15*, 177-196. doi: 10.1093/jpepsy/15.2.177
- Spielman, V., & Taubman-Ben-Ari, O. (2009). Parental self-efficacy and stress-related growth in the transition to parenthood: A comparison between parents of pre- and full-term babies. *Health & Social Work*, *34*(3), 201-212. doi: 10.1093/hsw/34.3.201
- Sroufe, L. A. (1997). Psychopathology as an outcome of development. *Developmental Psychology*, *9*, 251-268. doi: 10.1017/S0954579497002046
- Stainton, T., & Besser, H. (1998). The positive impact of children with an intellectual disability on the family. *Journal of Intellectual & Developmental Disability*, *1998*(23), 57-70. doi: 10.1080/13668259800033581
- Starke, M., Wikland, K., & Möller, A. (2002). Parents' experiences of receiving the diagnosis of Turner syndrome: An explorative and retrospective study. *Patient Education and Counseling*, *47*, 347-354. doi: 10.1016/S0738-3991(02)00010-1
- Statham, H., Solomou, W., & Chitty, L. (2000). Prenatal diagnosis of fetal abnormality: Psychological effects on women in low-risk pregnancies. *Baillière's Clinical Obstetrics and Gynaecology*, *14*(4), 731-747. doi: 10.1053/beog.2000.0108
- Stein, R. E. K., & Jessop, D. J. (2003). The Impact on Family Scale revisited: Further psychometric data. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics*, *24*(1), 9-16.
- Stein, R. E. K., & Riessman, C. K. (1980). The development of an Impact on Family Scale: Preliminary findings. *Medical Care*, *18*, 465-472.
- Stene-Larsen, K., Brandlistuen, R., Holmstrom, H., Landolt, M., Eskedal, L., & Vollrath, M. (2010). Emotional reactivity in infants with congenital heart defects: Findings from a large case-cohort study in Norway. *Acta Paediatrica*, *99*, 52-55. doi: 10.1111/j.1651-2227.2009.01515.x

- Strauss, R., Sharp, M., Lorch, S., & Kachakia, B. (1995). Physicians and the communication of "bad news": Parent experiences of being informed of their child's cleft lip and/or palate. *Pediatrics, 96*(1), 82-89.
- Taanila, A., Syrjälä, L., Kokkonen, J., & Järvelin, M.-R. (2002). Coping of parents with physically and/or intellectually disabled children. *Child: Care, Health & Development, 28*(1), 73-86. doi: 10.1046/j.1365-2214.2002.00244.x
- Tak, Y. R., & McCubbin, M. (2002). Family stress, perceived social support and coping following the diagnosis of a child's congenital heart disease. *Journal of Advanced Nursing, 39*(2), 190-198. doi: 10.1046/j.1365-2648.2002.02259.x
- Tandberg, B. S., Ystrom, E., Vollrath, M., & Holmstrom, H. (2010). Feeding infants with CHD with breast milk: Norwegian mother and child Cohort Study. *Acta Paediatrica, 99*, 373-378. doi: 10.1111/j.1651-2227.2009.01605.x
- Taunt, H., & Hastings, R. P. (2002). Positive impact of children with developmental disabilities on their families: A preliminary study. *Education and Training in Mental Retardation and Developmental Disabilities, 37*, 410-420.
- Teti, D., O'Connell, M., & Reiner, C. D. (1997). Parenting sensitivity, parental depression, and child health: The mediational role of parental self-efficacy. *Early Development and Parenting, 5*(4), 237-250. doi: 10.1002/(SICI)1099-0917(199612)5:4<237::AID-EDP146>3.0.CO;2-5
- The WHOQOL Group. (1998). Development of the World Health Organization WHOQOL-Bref Quality of Life Assessment. *Psychological Medicine, 28*(3), 551-558.
- The WHOQOL Group. (1994). Development of the WHOQOL: Rationale and current status. *International Journal of Mental Health, 23*(3), 24-56.
- Thompson, R. J., Gil, K., Gustafson, K., George, L., Keith, B., Spock, A., & Kinney, T. (1994). Stability and change in the psychological adjustment of mothers of children and adolescents with cystic fibrosis and sickle cell disease. *Journal of Pediatric Psychology, 19*, 171-188. doi: 10.1093/jpepsy/19.2.171
- Thompson, R. J., & Gustafson, K. (1996). *Adaptation in chronic childhood illness*. Washington, DC: American Psychological Association.
- Torowicz, D., Irving, S., Hanlon, A., Sumpter, D., & Medoff-Cooper, B. (2010). Infant temperament and parent stress in 3-month-old infants following surgery for complex congenital heart disease. *Journal of Developmental & Behavioral Pediatrics, 31*(3), 202-208. doi: 10.1097/DBP.0b013e3181d3deaa
- Truitt, M., Biesecker, B., Capone, G., Bailey, T., & Erby, L. (2012). The role of hope in adaptation to uncertainty: The experience of caregivers of children with Down Syndrome. *Patient Education and Counseling, 87*, 233-238. doi: 10.1016/j.pec.2011.08.015
- Turnbull, A. (1985). *Positive contributions that members with disabilities make to their families*. Paper presented at the AAMD 109th Annual Meeting, Philadelphia.
- Uzark, K., & Jones, K. (2003). Parenting stress and children with heart disease. *Journal of Pediatric Health Care, 17*, 163-168. doi: 10.1067/mp.2003.22

- Vaz-Serra, A. (2010). Qualidade de vida e saúde. In A. Vaz-Serra, & M. C. Canavarro (Eds.), *Qualidade de vida e saúde: Uma abordagem na perspectiva da Organização Mundial de Saúde* (pp. 23-53). Lisboa: Fundação Calouste Gulbenkian.
- Vaz-Serra, A., Canavarro, M. C., Simões, M. R., Pereira, M., Gameiro, S., Quartilho, M., . . . Paredes, T. (2006). Estudos psicométricos do instrumento de avaliação da qualidade de vida da Organização Mundial de Saúde (WHOQOL-Bref) para português de Portugal. *Psiquiatria Clínica, 27*(1), 41-49.
- Vrijmoet-Wiersma, C., Ottenkamp, J., Roozendaal, M., Grootenhuis, M., & Koopman, H. (2009). A multicentric study of disease-related stress, and perceived vulnerability, in parents of children with congenital cardiac disease. *Cardiology in the Young, 19*, 608-614. doi: 10.1071/S1047951109991831
- Wallander, J. L., & Varni, J. (1998). Effects of Pediatric physical disorders on child and family adjustment. *Journal of Child Psychology Psychiatry, 39*(1), 29-46. doi: 10.1111/1469-7610.00302
- Wei, M., Heppner, P., & Mallinckrodt, B. (2003). Perceived coping as a mediator between attachment and psychological distress: A structural equation modeling approach. *Journal of Counseling Psychology, 50*(4), 438-447. doi: 10.1037/0022-0167.50.4.438
- Williams, A. R., Piamjariyakul, U., Williams, P. D., Bruggeman, S. K., & Cabanela, R. L. (2006). Validity of the revised Impact on Family (IOF) Scale. *The Journal of Pediatrics, 149*, 257-261. doi: 10.1016/j.jpeds.2006.04.003
- Witt, W., Riley, A. W., & Coiro, M. J. (2003). Childhood functional status, family stressors, and psychological adjustment among school-aged children with disabilities in the United States. *Archives of Pediatric and Adolescent Medicine, 157*, 687-695. doi: 10.1001/archpedi.157.7.687
- World Health Organization. (1992). *International Classification of Diseases 10th*. Geneva: World Health Organization.
- World Health Organization. (1997). *WHOQOL: Measuring quality of life*. Geneva: World Health Organization.
- World Health Organization. (2001). *International classification of functioning, disability and health*. Geneva: World Health Organization.
- World Health Organization. (2012). *Health topics: Disabilities*. Retrieved April 20, 2012, from www.who.int/topics/disabilities/en/
- World Medical Association. (2000). Declaration of Helsinki: Ethical principles for medical research involving human subjects. *Journal of the American Medical Association, 284*, 3043-3045. doi: 10.1001/jama.284.23.3043
- Zahr, L. (1991). The relationship between maternal confidence and mother-infant behaviors in premature infants. *Research in Nursing & Health, 14*(4), 279-286. doi: 10.1002/nur.4770140406

Zahr, L. (1993). The confidence of Latina mothers in the care of their low birth weight infants. *Research in Nursing & Health, 16*, 335-342. doi: 10.1002/nur.4770160504



Anexo

Estudo de Revisão da Literatura

Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congênita no bebê:
Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde

2010

Psicologia, Saúde & Doenças

Volume 11

Páginas: 283-297

Reações parentais ao diagnóstico perinatal de anomalia congénita no bebé: Implicações para a intervenção dos profissionais de saúde

Ana Fonseca & Maria Cristina Canavarro

Resumo

A notícia de um diagnóstico de anomalia congénita do bebé no período perinatal reveste-se de um impacto emocional significativo para os pais, constituindo um desafio para a atuação dos profissionais de saúde.

O objetivo deste trabalho é delinear implicações para a intervenção dos profissionais de saúde, tendo por base uma reflexão sobre a investigação existente acerca das reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé.

A investigação empírica descreve reações parentais iniciais semelhantes à resposta de luto (choque, tristeza, ansiedade, culpa e raiva), num processo gradual de adaptação, geralmente conducente à restituição do equilíbrio emocional. Verificam-se também algumas especificidades, em função do momento em que o diagnóstico é conhecido.

Da reflexão sobre estes resultados, emergem algumas orientações para a atuação dos profissionais de saúde, nomeadamente no que respeita à comunicação do diagnóstico, à necessidade de uma equipa multidisciplinar coordenada que proporcione um contexto seguro de prestação de cuidados e à relevância de intervenções psicossociais com estas famílias.

Palavras-chave: diagnóstico pré-natal; diagnóstico pós-natal; anomalia congénita no bebé; reações parentais; intervenção dos profissionais de saúde; intervenção psicossocial

Introdução

O diagnóstico de anomalia congénita no bebé tem um impacto significativo ao nível da saúde pública, pelo seu efeito negativo na qualidade de vida das crianças afetadas e dos seus familiares, e pelos serviços médicos, sociais e educacionais requeridos para melhorar o seu bem-estar (Euro-Peristat Project, 2008). O impacto do diagnóstico de anomalia congénita no bebé é também visível em vários domínios de vida dos membros da família (e.g., financeiro, social, profissional), pelo que o confronto com esta notícia é, para os pais, um período particularmente desafiante e exigente, com possíveis implicações a nível emocional (Seligman & Darling, 2007).

O reconhecimento deste impacto coloca em aberto a necessidade de os profissionais de saúde considerarem como foco da sua intervenção, quer a criança com anomalia congénita, quer o bem-estar e as necessidades individuais dos seus pais, adequando, para isso, diferentes aspetos da prestação de cuidados a estas famílias. Para isso, necessitam de (re)conhecer a diversidade de reações parentais à notícia de um diagnóstico de anomalia congénita do bebé, bem como a sua variabilidade em função, por exemplo, do momento em que o diagnóstico é conhecido.

Segundo o nosso conhecimento, a literatura nacional nesta área é escassa; assim, partindo de uma revisão aprofundada da literatura empírica sobre as reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé, o objetivo deste trabalho é delinear um conjunto de implicações para a intervenção dos profissionais de saúde e de saúde mental neste contexto.

Dada a multiplicidade de investigações sobre esta temática, optámos por excluir aquelas que se focam na experiência de perda subsequente à interrupção da gravidez por diagnóstico de anomalia congénita, pelas características particulares que lhe estão subjacentes; e aquelas cujo foco principal são variáveis individuais/interpessoais específicas (e.g., estilos de *coping*) com influência na diversidade da resposta parental à notícia do diagnóstico, por se afastarem do principal objetivo deste trabalho.

A literatura empírica na área em apreço organiza-se, sobretudo, pelo momento em que o diagnóstico de anomalia congénita do bebé foi conhecido (pré ou pós-natal). Neste contexto, optámos por apresentar os estudos de acordo com o momento do diagnóstico para, posteriormente, apresentarmos investigações que comparam as reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé, em função do momento em que este é conhecido. As principais conclusões dos estudos serão objeto de reflexão, com vista a desenvolver orientações para a intervenção dos profissionais de saúde, que serão sistematizadas no último ponto deste trabalho.

Reações parentais ao diagnóstico de anomalia congênita no bebê no período pré-natal

A realização de diagnóstico pré-natal (DPN) é percebida, pelas mulheres, como um dos acontecimentos mais emocionalmente significativos durante a gravidez, a par da descoberta da gravidez e do momento do nascimento (Lee, 1995). O conjunto de técnicas de DPN, cuja utilização é cada vez mais difundida, possibilita a detecção, no período pré-natal, de um vasto leque de anomalias congénitas. A sua difusão e integração nas rotinas pré-natais resultaram, com frequência, numa antecipação do *timing* do diagnóstico, do período pós-natal para o período pré-natal (Bijma, Heide, & Wildschut, 2007). O diagnóstico pré-natal de anomalia congénita no bebê surge frequentemente de forma inesperada, por vários motivos: pelo enraizamento da ideia geral, fruto dos avanços da Medicina, de que gravidez é um processo sem desvios ou complicações; pela frequente inexistência prévia de sintomas sinalizadores de que algo não estava bem com o bebê; e, também, pela progressiva construção parental de uma representação idealizada de um bebê saudável, perfeito e bonito (e.g. Kowalcek, Mühlhoff, Bachmann, & Gembruch, 2002; Seligman & Darling, 2007).

De forma geral, as investigações, utilizando uma metodologia qualitativa, reportam um forte impacto inicial da notícia de um diagnóstico de anomalia congénita no bebê, durante o período pré-natal. São descritas reações de choque, trauma e rutura com a conceção prévia do mundo após a notícia do diagnóstico (Lalor & Begley, 2006; Mitchell, 2004), que têm subjacente a perda das expectativas prévias de um bebê saudável; quando o diagnóstico é conhecido através de um procedimento não invasivo de DPN como a ecografia, acresce a isto a rutura com a perceção positiva associada a este procedimento, habitualmente encarado como uma forma de conhecer o bebê e não como uma técnica de diagnóstico (Lalor & Begley, 2006).

Com frequência, são também descritas reações iniciais de negação, descrença e alienação do mundo; frustração, raiva ou irritabilidade; e culpa, tristeza ou luto (Chaplin, Schwitzer, & Perkoulidis, 2005; Petrucelli, Walker, & Schorry, 1998). O contraste entre sentimentos de medo e de alívio é também referenciado no estudo de Petrucelli e colaboradores (1998); este alívio parece decorrer da possibilidade de identificação de um problema para o qual anteriormente já existiam suspeitas, e/ou da inexistência de outras malformações que impliquem consequências mais graves para o bebê. Estas reações são semelhantes às que caracterizam a resposta de luto após uma perda, o que vai ao encontro da conceptualização do diagnóstico de anomalia congénita do bebê como um dos tipos de perda que podem ocorrer no período perinatal (Rolim & Canavarro, 2001).

Após as reações iniciais, os sentimentos mais comumente experienciados pelos pais, durante o período final da gravidez, parecem oscilar numa ambivalência entre esperança e medo, sofrimento e confiança, otimismo e pessimismo; contudo, uma minoria de pais relata uma experiência subsequente da gravidez traumatizante e debilitante, marcada por irritabilidade e

isolamento (Chaplin et al., 2005). Jones, Statham e Solomou (2005) identificaram três dimensões predominantes da vivência materna da gravidez, após a notícia do diagnóstico: *ambivalência*, expressa em dúvidas sobre a decisão de continuar a gravidez e em sentimentos de proteção e rejeição do bebê; *incerteza* associada ao prognóstico do bebê; e *perda*, quer de um bebê saudável, quer do seu papel central na gravidez. Relativamente a este último aspeto, os autores esclarecem que, por exemplo, as recomendações médicas de repouso que impossibilitam as mães de participar ativamente nos preparativos para a chegada do bebê, ou a perspectiva de que os primeiros cuidados ao bebê poderão ser prestados numa unidade de cuidados neonatais, podem contribuir para que as mulheres percecionem que o seu papel face ao bebê é diminuído.

Na literatura empírica, dois estudos merecem destaque por apresentarem duas propostas de compreensão da adaptação materna a um diagnóstico de anomalia congênita no bebê no período pré-natal.

O primeiro, conduzido por Lalor, Begley e Galavan (2009), foi inovador pela sua natureza prospetiva, contemplando três momentos de avaliação (pós-diagnóstico, antes e após o nascimento). Os resultados obtidos descrevem um processo de adaptação materna ao diagnóstico pré-natal de anomalia congênita no bebê numa sequência de quatro estádios/etapas, não sendo desprezada a sua natureza cíclica.

De acordo com os autores, a notícia do diagnóstico abala as expectativas maternas de que tudo está bem com o bebê (estádio inicial), originando reações de choque, medo, pânico, sofrimento e tentativa de fuga da realidade (segundo estágio); algumas mulheres chegam a experienciar curtos períodos de descrença ou de expectativa de que tenha existido um erro no diagnóstico efetuado. O terceiro estágio – procura de significado para o diagnóstico de anomalia congênita no bebê –, no qual as mães são confrontadas com a necessidade de adaptação à notícia, caracteriza-se pela ambivalência entre a procura e o evitamento de informação sobre o diagnóstico; pela procura dos determinantes causais da anomalia diagnosticada; e pela necessidade de confrontar e reenquadrar, a um nível mais próximo, expectativas e projetos para a gravidez e, a um nível mais amplo, crenças prévias sobre o mundo (e.g. *Mulheres saudáveis têm bebês saudáveis*). O processo de construção de significado é idiossincrático, segundo os autores, e o seu *timing* dependerá de fatores diversos como o prognóstico da anomalia. Finalmente, o último estágio caracteriza-se por um movimento para a construção de um novo significado sobre a anomalia fetal e a assunção de uma visão positiva do futuro – estágio de reconstrução (Lalor et al., 2009).

Também Aite e colaboradores (2006) procuraram esboçar um modelo de resposta emocional materna ao diagnóstico pré-natal de anomalia fetal. Os resultados do estudo sugerem a existência de reações iniciais de choque e de subsequente descrença e negação do acontecimento. Seguem-se, durante a gravidez, sentimentos de culpa e tristeza e, menos frequentemente, raiva, medo e preocupação com a possibilidade de perder o bebê ou com o risco de outras anomalias. A predominância do medo ao longo da gravidez parece ter subjacente a ameaça que o diagnóstico se constituiu para o sentido de controlo, competência e estabilidade

materna. Os resultados evidenciam também que a maioria das mães atinge, ainda durante a gravidez, um estágio de adaptação, caracterizado pela flutuação entre a diminuição do sofrimento emocional e restituição do sentimento de controle da situação, por um lado, e fortes emoções de medo e incerteza, por outro.

Os dois estudos reportam uma sequência de respostas semelhante à notícia do diagnóstico de anomalia congênita, sendo possível estabelecer paralelismos entre alguns estágios (estágio de reconstrução *vs.* adaptação). Apesar dos benefícios da identificação deste processo sequencial, atenção deve ser dada àquilo que os próprios autores salientam (Lalor et al., 2009) – a sua natureza cíclica.

As investigações descritas assumem uma natureza predominantemente exploratória e apresentam várias limitações metodológicas: reduzido tamanho das amostras; foco quase exclusivo na vivência materna, deixando por explorar a experiência paterna de adaptação a um diagnóstico de anomalia fetal; e metodologia de avaliação retrospectiva. Apesar disso, os contributos apresentados dão conta de informação relevante para os profissionais de saúde – o confronto com o diagnóstico pautado por emoções mais disruptivas, a que se segue, habitualmente, um período de progressiva adaptação –, da qual podem decorrer implicações importantes, que assumem para nós particular interesse no presente artigo, e que serão objeto de reflexão noutra parte deste trabalho.

Reações parentais ao diagnóstico de anomalia congênita no bebê no período pós-natal

Algumas anomalias congénitas são apenas detetadas no momento do nascimento, colocando de forma súbita aos pais um duplo desafio. Por um lado, a perda do bebê esperado – perfeito e saudável – e, por outro, o nascimento de um bebê com características e exigências distintas, que pode ser percebido como ameaçador (e.g. Messias, Gillis, Sparacino, Tong, & Foote, 1995). Diversas investigações têm sido realizadas, com o objetivo de caracterizar a reação parental ao diagnóstico de anomalia congénita no bebê, quando este é conhecido no período pós-natal.

De entre elas, destacamos uma investigação pioneira (Drotar, Baskiewicz, Irvin, Kennell, & Klaus, 1975), de natureza qualitativa, que integrou 25 participantes, pais de crianças com diferentes tipos de anomalias congénitas. Apesar da discrepância observada no momento de recolha dos dados (desde poucos dias a treze anos após o nascimento do bebê), os resultados sugerem a ocorrência sequencial de um conjunto de reações parentais após o diagnóstico. As reações iniciais de choque (disrupção emocional, choro intenso e desespero) dão progressivamente lugar a um período de negação, pautado pelo desejo de libertação da inevitabilidade do diagnóstico ou de negação do seu impacto. Os resultados apontam ainda para

a existência posterior de sentimentos intensos de ansiedade, tristeza e raiva. A progressiva diminuição da reatividade emocional negativa experienciada, bem como a crescente percepção de conforto face à situação e de capacidade de cuidar do bebê caracterizam um período subsequente na trajetória parental, descrito pelos autores como de adaptação e subsequente reorganização (Drotar et al., 1975). Pela natureza transversal do estudo, a coocorrência de diferentes fases e a sua duração não foram diretamente avaliadas.

Experiências parentais semelhantes foram documentadas noutros estudos sobre malformações congênitas em geral (Carvalho, Cardoso, Oliveira, & Lúcio, 2006; Petean & Neto, 1998) e sobre malformações específicas, nomeadamente o lábio leporino e fenda palatina (Johansson & Ringsberg, 2004) ou Síndrome de Down (Skotko, 2005). Os resultados da investigação de Johansson e Ringsberg (2004) destacam, de modo particular, a ambivalência dos sentimentos experienciados após o diagnóstico – numa sequência que pode não ser tanto linear, mas cíclica, à semelhança do referido a propósito da adaptação parental ao diagnóstico de anomalia congênita no período pré-natal (Lalor et al., 2009).

Tal como salientado no ponto anterior, também as reações parentais ao diagnóstico pós-natal de anomalia congênita no bebê se assemelham às reações características da resposta de luto por uma perda significativa. Por não corresponder a uma perda “visível”, esta pode não ser reconhecida pelos profissionais de saúde e pela sociedade em geral, podendo consequentemente representar uma exigência acrescida para estes pais, que se sentem isolados na sua vivência (Rolim & Canavarro, 2001).

Numa outra investigação (Pelchat et al., 1999), foram avaliados os níveis de *stress* e sofrimento emocional experienciados pelos pais, seis meses após o nascimento do bebê. Os autores contrastaram os resultados dos pais de crianças saudáveis e pais de crianças com diferentes tipos de anomalias congênitas (anomalia cardíaca congênita, síndrome de Down e fenda palatina e lábio leporino corrigido cirurgicamente após o nascimento). Os resultados sugerem o impacto significativo, na adaptação parental, de um diagnóstico de anomalia congênita no bebê, sendo esse impacto diferencial em função do tipo de anomalia considerada. Os pais de crianças com síndrome de Down ou anomalia cardíaca congênita apresentam, comparativamente com os pais de crianças saudáveis ou com fenda palatina e lábio leporino, níveis significativamente superiores de *stress* em relação à aceitação do bebê, sentem-se significativamente mais ameaçados pela situação parental, percebendo-a como mais incontrolável, *stressante* e causadora de maior sofrimento emocional. Neste contexto, parecem ser as anomalias congênitas que acarretam risco de problemas de desenvolvimento e/ou sobrevivência para o bebê, aquelas que apresentam maior impacto na adaptação parental, seis meses após o nascimento do bebê (Pelchat et al., 1999).

Um outro contributo para o estado da arte na área em apreço, é oferecido por um estudo recente (Grob, 2008), de cariz retrospectivo e qualitativo, que elucidou acerca do impacto diferencial do diagnóstico de anomalia congênita no bebê, em função da (in)existência de manifestações sintomáticas da anomalia. Partindo de uma amostra de pais de bebês

diagnosticados com fibrose quística após o nascimento, o autor salienta que, para os pais cujo bebé apresenta manifestações sintomáticas da anomalia, as reações de tristeza e de medo coocorrem com uma sensação de alívio, evidenciando a percepção parental de que a identificação da anomalia pode possibilitar a realização de tratamentos conducentes à melhoria do estado de saúde do bebé. Por outro lado, as reações dos pais cujo diagnóstico ocorre na ausência de quaisquer sintomas são descritas como mais devastadoras e inesperadas; estes pais lidam com a exigência acrescida do confronto com a contradição entre um diagnóstico que resulta de um teste efetuado e a realidade de uma criança aparentemente saudável.

Em síntese, os resultados apresentados neste ponto apontam também para a natureza processual da adaptação parental ao diagnóstico, bem como para a influência de alguns fatores (e.g., tipo de anomalia e suas manifestações) na diversidade das reações experienciadas, depreendendo-se desde logo a necessidade de uma prestação de cuidados diferenciada, em função desses fatores. Tal como as investigações do ponto anterior, estas investigações padecem do mesmo tipo de limitações metodológicas; esse facto não retira a importância do seu contributo para o estado da arte na área em apreço e para o desenvolvimento de orientações para a prestação de cuidados neste contexto específico, como discutiremos no último ponto deste trabalho.

Reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé: O momento importa?

A análise destes estudos sugere a existência de algumas comunalidades nas reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé, independentemente de este ter sido conhecido no período pré-natal ou após o nascimento. No entanto, alguns autores têm procurado averiguar se o momento em que o diagnóstico é conhecido tem um impacto diferencial nas reações parentais experienciadas. Os resultados dos estudos existentes não oferecem uma resposta inequívoca a esta questão.

No estudo de Skari e colaboradores (2006), por exemplo, verificou-se que, logo após o nascimento do bebé, o grupo de pais cujo diagnóstico foi conhecido no período pré-natal apresenta, comparativamente ao grupo de pais que conheceu o diagnóstico no período pós-natal, níveis superiores de ansiedade e depressão e maior hiperactivação emocional. Estes resultados são semelhantes às seis semanas e aos seis meses após o nascimento do bebé, embora o momento do diagnóstico possua um papel preditor apenas das reações emocionais dos pais poucos dias após o nascimento. Numa outra investigação que procurou avaliar a influência do momento do diagnóstico nos níveis maternos de sintomatologia ansiosa e depressiva, seis a dez meses após o diagnóstico de anomalia congénita, os resultados apontam num sentido contrário: uma percentagem significativamente superior de participantes do grupo que conheceu o diagnóstico no período pós-natal apresenta pontuações indicadoras de depressão clínica; os

níveis de ansiedade não se distinguem em função do momento do diagnóstico (Rona, Smeeton, Beech, Barnett, & Sharland, 1998). No entanto, esta diferença pode justificar-se pelo facto de este estudo ter uma amostra de participantes exclusivamente do sexo feminino, para além de tomar como referência o tempo decorrido desde o diagnóstico, e não o tempo decorrido desde o nascimento do bebé, como no estudo anterior, implicando necessariamente o facto de, aquando da avaliação, estar também em causa a comparação de exigências diferentes de prestação de cuidados, pelas diferenças etárias dos bebés.

De acordo com Nusbaum e colaboradores (2008), o momento em que o diagnóstico ocorre influencia a perceção parental do grau de controlo e de preparação para lidar com os acontecimentos circundantes ao diagnóstico do bebé. O conhecimento pré-natal do diagnóstico associa-se a uma perceção parental de mais tempo para se preparar e ajustar ao diagnóstico antes do nascimento do bebé, bem como a uma perceção de controlo acrescido dos acontecimentos. Por outro lado, os pais cujo diagnóstico apenas foi conhecido no momento do nascimento percecionam-se como menos preparados e com menor controlo dos acontecimentos. Salientam, no entanto, que as exigências de prestação de cuidados ao bebé com anomalia congénita impõem a necessidade de lidar e de se ajustarem rapidamente à situação.

Os resultados das investigações existentes sugerem também que o momento em que o diagnóstico de anomalia congénita no bebé é conhecido, tem um impacto distinto em função do género dos pais. Por exemplo, os resultados da investigação de Hoehn e colaboradores (2004) evidenciam que enquanto as mães apresentam níveis similares de *stress* parental, independentemente do *timing* de conhecimento do diagnóstico, os pais cujo diagnóstico do bebé ocorreu no período pré-natal apresentam, comparativamente aos outros, níveis superiores de otimismo e níveis inferiores de ansiedade, bem como perceção de menos acontecimentos de vida negativos. As discrepâncias nos níveis de *stress* parental paterno parecem, de acordo com os autores, ter subjacente uma diferença na perceção de controlo da situação. Enquanto os pais que conheceram o diagnóstico no período pré-natal salientaram a oportunidade de planear a forma de lidar com as principais preocupações associadas ao período pós-parto (e.g., aspetos profissionais ou financeiros, lidar com outros filhos), isso não se verificou com os pais que conheceram o diagnóstico no período pós-natal, a quem acresceu ainda a preocupação com mãe do bebé, muitas vezes ainda internada e a recuperar do parto (Hoehn et al., 2004).

Já uma outra investigação, que procurou avaliar, em média seis meses após o parto, as reações de luto e a perceção de sobrecarga (*burden*) de pais de bebés com anomalia congénita, encontrou também um padrão distinto da influência do momento em que o diagnóstico foi conhecido, em função do género. Por um lado, as mães que conheceram o diagnóstico no período pré-natal apresentam respostas de luto mais intensas e maior perceção de sobrecarga, quando comparadas com as mães que conhecem o diagnóstico após o nascimento. Por outro lado, os pais que conheceram o diagnóstico de anomalia no período pré-natal diferenciam-se dos pais cujo diagnóstico foi conhecido no período pós-natal, apenas pela maior perceção de sobrecarga a nível financeiro (Hunfeld, Tempels, Passchier, Hazebroek, & Tibboel, 1999).

Saliente-se que, apesar da operacionalização das variáveis ser distinta nos dois estudos que apontam estas diferenças (Hoehn et al., 2004; Hunfeld et al., 1999), conhecer o diagnóstico no período pré-natal parece ter um efeito mais positivo logo após o nascimento, para os pais, e um efeito mais negativo, cerca de seis meses após o nascimento, para as mães. Uma possível hipótese explicativa para este facto prende-se com o papel distinto que cabe às figuras materna e paterna, enquanto prestadoras de cuidados. Face aos constrangimentos físicos da mãe, no período imediatamente subsequente ao parto, o pai pode assumir o papel de principal recetor da informação clínica e de principal decisor sobre aspetos relacionados com o diagnóstico do bebé; de responsável pela gestão de outros aspetos familiares (e.g., outros filhos, questões económicas); bem como de principal cuidador da mãe, que se encontra ainda debilitada. Nesse sentido, o conhecimento prévio do diagnóstico permitirá ao pai, uma maior antecipação dos acontecimentos e a conseqüentemente perceção do seu controlo, como salientam Hoehn e colaboradores (2004). Por outro lado, após a recuperação física do parto, as mães parecem assumir o papel de principais cuidadoras do bebé com diagnóstico de anomalia congénita. Para aquelas cujo conhecimento do diagnóstico ocorreu no período pré-natal, o choque da notícia, a incerteza e a maior medicalização da gravidez podem significar uma vivência mais disruptiva do período subsequente da gravidez (Chaplin et al., 2005; Jones et al., 2005), constituindo-se como um fator de desgaste emocional acrescido, que pode ter repercussões aquando da prestação de cuidados ao bebé, após o seu nascimento.

Apesar de a investigação sobre este tópico apresentar pistas importantes, não é conclusiva, sendo necessária a realização de estudos adicionais, quer para o esclarecimento dos resultados encontrados, quer para a validação e produção de hipóteses explicativas sobre os mecanismos e/ou processos que podem estar subjacentes ao impacto diferencial do momento do diagnóstico e às suas especificidades em função do género. O esclarecimento deste tópico pode também beneficiar da consideração conjunta de outras variáveis (e.g., tipo de anomalia congénita, forma como é veiculada a informação sobre o diagnóstico).

Implicações para a prestação de cuidados aos pais que se confrontam com o diagnóstico de anomalia congénita do bebé no período perinatal

Ao longo deste artigo, procurámos refletir criticamente sobre a literatura empírica existente no domínio das reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita do bebé, quando este é conhecido durante a gravidez ou no período pós-natal. Não obstante a importância dos estudos revistos, algumas limitações podem ser apontadas à sua generalidade: i) a natureza predominantemente retrospectiva, com uma larga amplitude no que respeita ao momento de avaliação (desde poucos dias ou meses a vários anos após o diagnóstico); ii) a natureza predominantemente transversal, que dificulta a captação de trajetórias e de processos; e iii) a reduzida dimensão de algumas amostras e a consideração exclusiva, em muitos estudos, da

experiência materna, deixando de lado a vivência paterna. A investigação nesta área, procurando ultrapassar as limitações encontradas e procurando responder a outras questões de investigação, entretanto formuladas, continua a ser relevante, em termos futuros.

Apesar de não ser formalmente reconhecido nas investigações, esta revisão descreve a diversidade das reações parentais ao diagnóstico de anomalia congénita no bebé; esta diversidade emerge, por um lado, do abandono de perspectivas deterministas do fenómeno em estudo (que assumiam uma reação linear entre a notícia do diagnóstico e a perturbação do funcionamento parental; Ferguson, 2002) e, por outro lado, da realização de investigações que, progressivamente, procuraram avaliar não só as reações parentais negativas, mas aquelas que denotam a adaptação e a restituição do equilíbrio emocional ao longo do tempo.

A generalidade das investigações sugere que, perante o confronto com o diagnóstico, e de forma mais ou menos independente do momento em que este é conhecido, um acontecimento conotado positivamente – o nascimento de um bebé – passa a ter uma tonalidade emocional predominantemente negativa (reações de choque e disrupção emocional, a que crescem sentimentos comuns de ansiedade, tristeza, raiva ou culpa). Para os pais, o diagnóstico constitui uma perda do bebé perfeito e saudável, dos projetos e expectativas, mas também do seu papel parental, cuja vivência extravasa a intimidade familiar e passa a ser amplamente partilhada pelos profissionais e contextos de saúde (Seligman & Darling, 2007).

Por outro lado, os estudos realçam também a ambivalência de sentimentos experienciados pelos pais (numa oscilação entre uma carga emocional negativa e algum otimismo, esperança ou mesmo alívio pela confirmação de um diagnóstico até aí incerto), num movimento que evidencia a natureza processual da adaptação parental ao diagnóstico, e que é geralmente conducente à restituição do equilíbrio emocional – aquilo que alguns autores designam de adaptação ou reconstrução (Aite et al., 2006; Drotar et al., 1975; Lalor et al., 2009).

A revisão efetuada oferece-nos agora uma oportunidade para refletir acerca das implicações para a prestação de cuidados aos pais, por parte dos profissionais de saúde e de saúde mental, em situações de anomalia congénita do bebé. Começaremos, neste contexto, por refletir acerca de algumas implicações gerais e, posteriormente, implicações específicas, em função do momento em que ocorreu o diagnóstico.

Em primeiro lugar, parece patente a necessidade de uma prestação de cuidados coordenada entre os diferentes profissionais de saúde, num ambiente que possibilite o estabelecimento de relação com os cuidadores, e onde o impacto emocional de um diagnóstico de anomalia congénita do bebé seja amplamente reconhecido (Hodapp & Ly, 2005). Idealmente, a prestação de cuidados deverá ser feita no contexto de uma equipa interdisciplinar especializada, no qual todos os profissionais de saúde estejam despertos para as reações parentais mais frequentes perante o diagnóstico, mas também para a sua diversidade. No contexto da experiência clínica acumulada na UnIP – Unidade de Intervenção Psicológica da Maternidade Doutor Daniel de Matos (Hospitais da Universidade de Coimbra, EPE), temos comprovado a relevância desta ação coordenada entre os diversos profissionais envolvidos na prestação de

cuidados a estas famílias, bem como procurado contribuir para a sensibilização destes profissionais, no que respeita às manifestações emocionais e comportamentais associadas à notícia do diagnóstico, e de como atuar em adequação às mesmas.

Em segundo lugar, o reconhecimento de que, independentemente do momento em que o diagnóstico ocorre, as reações iniciais são de choque e de uma tonalidade emocional marcadamente negativa (Aite et al., 2006; Drotar et al., 1975; Mitchell, 2004) e que, conseqüentemente, tornam difícil o processamento e a assimilação de toda a informação clínica relativa ao diagnóstico. Nesse contexto, na comunicação do diagnóstico, os profissionais de saúde devem procurar, de acordo com as orientações de Spall e Callis (1997) e Marshak, Seligman e Prezant (1999): 1) preparar os pais para informação que vão receber; 2) dar, de forma honesta mas empática, a informação chave sobre o diagnóstico – informação adicional poderá ser dada gradualmente; 3) dar a possibilidade, aos pais, de expressarem as suas opiniões e emoções sem receio de rejeição, numa postura de aceitação e não interferência; 4) procurar obter *feedback* do que foi compreendido pelos pais acerca do diagnóstico, repetindo a informação quando necessário; e 5) mostrar disponibilidade para responder a todas as questões colocadas pelos pais, numa postura de aceitação e compreensão das suas dúvidas. A forte necessidade de questionamento sentida pelos pais, pode também advir de alguma expectativa de que o diagnóstico seja um erro ou da procura de explicações para o sucedido (Lalor et al., 2009), das incertezas sobre o diagnóstico (Jones et al., 2005), ou ainda, quando o diagnóstico ocorre após o nascimento, da inexistência de manifestações sintomáticas da anomalia (Grob, 2008). Cabe aos profissionais de saúde aceitar e normalizar esta necessidade por parte dos pais, respondendo às suas questões e mostrando disponibilidade para esclarecimentos adicionais, no futuro. Segundo Statham, Solomou e Chitty (2000) a comunicação acerca do diagnóstico entre os profissionais de saúde que prestam cuidados à família assume também particular relevância, assim como pode ser útil fornecer à família informação escrita sobre o diagnóstico de anomalia congénita, o seu prognóstico e tratamentos disponíveis.

Em terceiro lugar, como já referido, o diagnóstico de anomalia congénita no bebé representa, para os pais, não apenas uma perda do bebé saudável (Rolim & Canavarro, 2001), mas uma perda do seu papel parental (Jones et al., 2005). Para além do reconhecimento desta perda não “visível”, e não obstante o maior foco colocado na saúde do bebé e na antecipação e planificação dos tratamentos necessários (Statham et al., 2000), os profissionais de saúde devem procurar que os pais não sintam o seu papel parental diminuído (e.g., se for necessário o internamento do bebé, as melhores condições devem ser proporcionadas para favorecer o envolvimento dos pais na prestação de cuidados), para além de ajudar os pais a encontrar um equilíbrio saudável entre as preocupações com a saúde do bebé os outros aspetos do quotidiano que necessitam de ser geridos (Marshak et al., 1999). Este equilíbrio proporcionará aos pais a restituição de uma perceção de controlo (ainda que sob aspetos secundários ao diagnóstico), que foi ameaçada pela notícia do diagnóstico (Aite et al., 2006). Não obstante o papel de relevo de todos os profissionais de saúde, os técnicos de saúde mental são determinantes na restituição

parental deste controlo secundário. Aliás, no que concerne aos procedimentos de atuação da UnIP, este é um domínio essencial de atuação, quer no que respeita a uma intervenção mais direta com os pais, quer no que respeita à sensibilização e articulação entre os diferentes profissionais para uma adequação do contexto envolvente.

Quando o diagnóstico é conhecido durante a gravidez, a existência de um acompanhamento obstétrico numa consulta específica, com uma equipa especializada, revelar-se-á benéfica, não só pelo maior domínio e conhecimento de aspetos médicos da gravidez e do desenvolvimento do bebé, como também por se tornar um contexto seguro para os pais, proporcionando-lhes um ambiente de compreensão e empatia para com as suas reações e emoções. Adicionalmente, o diagnóstico durante a gravidez acarreta, frequentemente, um maior grau de incerteza (Jones et al., 2005) acerca do prognóstico e dos tratamentos necessários para o bebé. Mesmo que para a equipa médica a situação clínica esteja bem identificada, os pais poderão necessitar de uma maior monitorização da situação clínica do bebé (Aite et al., 2006) e de mais esclarecimentos para conseguirem lidar adaptativamente com a situação.

Quando o diagnóstico ocorre no momento do nascimento, os pais veem-se confrontados com a necessidade de dar resposta imediata às exigências da situação clínica do bebé (e.g., tomada de decisão sobre tratamentos), sem que tenham tido oportunidade de integrar e processar toda a informação sobre o diagnóstico. Neste contexto, deverão ser proporcionadas aos pais, ainda durante o internamento, todas as condições institucionais (de tempo e de contexto) para facilitar a integração da informação, o favorecimento da expressão emocional, os processos de tomada de decisão, bem como a gradual restituição do controlo pessoal sobre os acontecimentos. Adicionalmente, os profissionais de saúde deverão estar sensibilizados para o facto de os pais poderem necessitar de um tempo particular para iniciar o envolvimento e a prestação de cuidados ao bebé (por exemplo, quando se trata de uma malformação visível, ou quando existem exigências particulares na forma como os cuidados são prestados). Mesmo não sendo objeto de uma revisão aprofundada neste trabalho, os estudos sugerem reações parentais diferenciadas em função do tipo de anomalia ou das suas manifestações (Grob, 2008; Pelchat et al., 1999), levantando a possibilidade de estas especificidades serem consideradas na prestação de cuidados aos pais que recebem o diagnóstico pós-natal de anomalia congénita do bebé.

Finalmente, os aspetos salientados pela literatura empírica remetem para a pertinência de intervenções psicossociais conduzidas por técnicos especializados, na promoção da adaptação parental ao diagnóstico do bebé. Desde há vários anos, a UnIP tem prestado acompanhamento psicológico estruturado, em regime de consulta externa e/ou internamento, às famílias que recebem um diagnóstico de anomalia congénita do bebé, durante a gravidez ou após o nascimento. Atualmente, de acordo com os procedimentos da UnIP, estas situações são, por rotina, objeto de avaliação inicial pelos profissionais de saúde mental. Partindo da avaliação das manifestações emocionais e comportamentais dos pais face ao diagnóstico, e da identificação de possíveis fatores de risco e/ou proteção para o desenvolvimento de situações de risco

psicoemocional decidir-se-á, em conformidade com os pais, o grau de estruturação do acompanhamento psicológico prestado.

No âmbito desta intervenção, são três os objetivos centrais: 1) favorecer a expressão emocional, validação emocional e integração da notícia do diagnóstico; 2) desenvolver estratégias de *coping*, processos de tomada de decisão e resolução de problemas que ajudem os pais a lidar com aspetos associados ao diagnóstico mas também com as restantes áreas de vida; e 3) proporcionar o confronto com expectativas pré-existentes, adequando-as e integrando-as em novos significados acerca do diagnóstico e da relação com o bebé.

No que respeita ao primeiro objetivo, é no contexto de uma intervenção psicossocial que pode ser oferecida, aos pais, a oportunidade para expressar e partilhar sentimentos e perceções acerca do diagnóstico, aspetos importantes para favorecer a validação emocional e a integração do diagnóstico nas suas representações da criança e de si enquanto pais (Lalor et al., 2009). Os estudos aqui revistos antecipam que as perceções e significações parentais (e.g., perceção de controlo sobre os acontecimentos; diagnóstico como ameaça ao sentido de controlo e competência parental) assumem um papel relevante nos sentimentos experienciados pelos pais, face ao diagnóstico; a psicoeducação acerca da diversidade de reações parentais e da relação entre cognições, emoções e comportamentos pode beneficiar os pais, restituindo-lhes alguma compreensão sobre o que estão a experienciar.

Outro dos objetivos centrais da intervenção neste contexto consiste no desenvolvimento de estratégias que facilitem o *coping* com as reações emocionais e com a incerteza (Aite et al., 2006; Jones et al., 2005) associada ao prognóstico e tratamentos do bebé (por exemplo, manutenção de um diário, estruturação de rotinas diárias, estratégias de gestão de ansiedade), bem como na facilitação de processos de tomada de decisão e de resolução de problemas, quer relativos ao diagnóstico do bebé, quer relativos a outros aspetos da vida familiar (e.g., económicos, profissionais, relacionados com outros familiares; Marshak et al., 1999).

Adicionalmente, e no que diz respeito ao terceiro objetivo, uma intervenção psicossocial adequada poderá proporcionar o confronto com projetos e expectativas prévias e o seu reajuste, assim como com a possibilidade de construção de novos significados para o diagnóstico. Além disso, pode constituir uma oportunidade para gerir possíveis diferenças individuais de *coping* com o diagnóstico (Hoehn et al., 2004; Hunfeld et al., 1999), entre os membros do casal, bem como, como referimos anteriormente, para permitir a identificação de situações de risco psicoemocional, que necessitem de uma intervenção mais específica e individualizada.

Referências

- Aite, L., Zaccara, A., Nahom, A., Trucchi, A., Iacobelli, B., & Bagolan, P. (2006). Mothers' adaptation to antenatal diagnosis of surgically correctable anomalies. *Early Human Development*, *82*, 649-653. doi:10.1016/j.earlhumdev.2005.12.010

- Bijma, H., Heide, A. v. & Wildschut, H. (2007). Decision-making after ultrasound diagnosis of fetal abnormality. *Reproductive Health Matters*, 16(31), 82-89. doi: 10.1007/s11296-007-0070-0
- Carvalho, Q., Cardoso, M. V., Oliveira, M., & Lúcio, I. (2006). Malformação congênita: Significado da experiência para os pais. *Ciência, Cuidado e Saúde*, 5(3), 389-397.
- Chaplin, J. P., Schwitzer, R., & Perkoulidis, S. A. (2005). Experiences of prenatal diagnosis of spina bifida or hydrocephalus in parents who decide to continue with their pregnancy. *Journal of Genetic Counseling*, 14(2), 151-162. doi: 10.1007/s10897-005-0488-9
- Drotar, D., Baskiewicz, A., Irvin, N., Kennell, J., & Klaus, M. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: A hypothetical model. *Pediatrics*, 56(5), 710-717.
- Euro-Peristat Project. (2008). *European perinatal health report: Better statistics for better health for pregnant women and their babies*. Paris: Euro-Peristat Project.
- Ferguson, P. M. (2002). A place in the family: An historical interpretation of research on parental reactions to having a child with a disability. *The Journal of Special Education*, 36(3), 124-130. doi: 10.1177/00224669020360030201
- Grob, R. (2008). Is my sick child healthy? Is my healthy child sick?: Changing parental experiences of cystic fibrosis in the age of expanded newborn screening. *Social Science & Medicine*, 67, 1056-1064. doi: 10.1016/j.socscimed.2008.06.003
- Hodapp, R. M., & Ly, T. M. (2005). Parenting children with developmental disabilities. In T. Luster, & L. Okagaki (Eds.), *Parenting: An ecological perspective* (pp. 177-201). New Jersey: Lawrence Erlbaum Associates.
- Hoehn, K. S., Wernovsky, G., Rychik, J., Tian, Z., Donaghue, D., Alderfer, M., ..., Nelson, R. M. (2004). Parental decision-making in congenital heart disease. *Cardiology in the Young*, 14, 309-314. doi: 10.1017/S1047951104003099
- Hunfeld, J., Tempels, A., Passchier, J., Hazebroek, F., & Tibboel, D. (1999). Parental burden and grief one year after the birth of a child with a congenital anomaly. *Journal of Pediatric Psychology*, 24(6), 515-520. doi: 10.1093/jpepsy/24.6.515
- Johansson, B., & Ringsberg, K. C. (2004). Parents' experiences of having a child with cleft lip and palate. *Journal of Advanced Nursing*, 47(2), 165-173. doi: 10.1111/j.1365-2648.2004.03075.x
- Jones, S., Statham, H., & Solomou, W. (2005). When expectant mothers know their baby has a fetal abnormality: Exploring a crisis of motherhood through qualitative data-mining. *Journal of Social Work Research and Evaluation*, 6(2), 195-206.
- Kowalcek, I., Mühlhoff, A., Bachmann, S., & Gembruch, U. (2002). Depressive reactions and stress related to prenatal medicine procedures. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*, 19, 18-23. doi: 10.1046/j.0960-7692.2001.00551.x
- Lalor, J., & Begley, C. (2006). Fetal anomaly screening: What do women want to know? *Journal of Advanced Nursing*, 55(1), 11-19. doi: 10.1111/j.1365-2648.2006.03884.x

- Lalor, J., Begley, C., & Galavan, E. (2009). Recasting hope: A process of adaptation following fetal anomaly. *Social Science & Medicine*, *68*, 462-472. doi: 10.1016/j.socscimed.2008.09.069
- Lee, R. (1995). Women look at their experience of pregnancy. *Infant Mental Health Journal*, *16*(3), 192-205. doi: 10.1002/1097-0355(199523)16:3<192::AID-IMHJ2280160305>3.0.CO;2-D
- Marshak, L. E., Seligman, M., & Prezant, F. (1999). *Disability and the family life cycle*. New York: Basic Books.
- Messias, D., Gillis, C. L., Sparacino, P. S., Tong, E., & Foote, D. (1995). Stories of transition: Parents recall the diagnosis of congenital heart defect. *Family Systems Medicine*, *13*(3/4), 367-377. doi: 10.1177/107484079900500404
- Mitchell, L. M. (2004). Women's experiences of unexpected ultrasound findings. *Journal of Midwifery & Women's Health*, *49*(3), 228-234. doi: 10.1016/j.wombi.2010.01.001
- Nusbaum, R., Grubs, R. E., Losee, J. E., Weidman, C., Ford, M., & Marazita, M. (2008). A qualitative description of receiving a diagnosis of clefting in the prenatal or postnatal period. *Journal of Genetic Counseling*, *17*, 336-350. doi: 10.1007/s10897-008-9152-5
- Pelchat, D., Ricard, N., Bouchard, J. M., Perreault, M., Saucier, J. F., Berthiaume, & Bisson, J. (1999). Adaptation of parents in relation to their 6-month-old infant's type of disability. *Child: Care, Health and Development*, *25*(4), 377-397. doi: 10.1046/j.1365-2214.1999.00107.x
- Petean, E., & Neto, J. (1998). Investigação em aconselhamento genético: Impacto da primeira notícia - a reacção dos pais á deficiência. *Medicina, Ribeirão Preto*, *31*, 288-295.
- Petrucci, N., Walker, M., & Schorry, E. (1998). Continuation of pregnancy following the diagnosis of a fetal sex chromosome abnormality. *Journal of Genetic Counseling*, *7*(5), 401-415. doi: 10.1023/A:1022828715158
- Rolim, L., & Canavarro, M. C. (2001). Perdas e luto durante a gravidez e o puerpério. In M. C. Canavarro (Ed.), *Psicologia da gravidez e da maternidade* (pp. 255-296). Coimbra: Quarteto Editora.
- Rona, R. J., Smeeton, N. C., Beech, R., Barnett, A., & Sharland, G. (1998). Anxiety and depression in mothers related to severe malformation of the heart of the child and foetus. *Acta Paediatrica*, *87*, 201-205. doi: 10.1080/08035259850157679
- Seligman, M., & Darling, R. B. (2007). *Ordinary families, special children: A systems approach to childhood disability*. New York: The Guilford Press.
- Skari, H., Malt, U. F., Bjornland, K., Egeland, T., Haugen, G., Skreden, M., ..., Emblem, R. (2006). Prenatal diagnosis of congenital malformations and parental psychological distress: A prospective longitudinal cohort study. *Prenatal Diagnosis*, *26*, 1001-1009. doi: 10.1002/pd.1542
- Skotko, B. (2005). Mothers of children with Down syndrome reflect on their postnatal support. *Pediatrics*, *115*(1), 64-77. doi: 10.1542/peds.2004-0928
- Spall, B. & Callis, S. (1997). *Loss, bereavement and grief: A guide to effective caring*. Cheltenham: Stanley Thornes Publisher.

Statham, H., Solomou, W., & Chitty, L. (2000). Prenatal diagnosis of fetal abnormality: Psychological effects on women in low-risk pregnancies. *Baillière's Clinical Obstetrics and Gynaecology*, *14*(4), 731-747. doi: 10.1053/beog.2000.0108