

Susana Isabel Fernandes Santos

ADAPTAÇÃO INDIVIDUAL E FAMILIAR NO CANCRO PEDIÁTRICO: FATORES E CONTEXTOS DE INFLUÊNCIA

Tese de Doutoramento em Psicologia, especialidade em Psicologia da Saúde, orientada por Professora Doutora Carla Crespo, Professora Doutora Maria Cristina Canavaro e Professora Doutora Anne E. Kazak e apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

Setembro 2016



UNIVERSIDADE DE COIMBRA



FPCEUC FACULDADE DE PSICOLOGIA
E DE CIÊNCIAS DA EDUCAÇÃO
UNIVERSIDADE DE COIMBRA

Susana Isabel Fernandes Santos

ADAPTAÇÃO INDIVIDUAL E FAMILIAR NO CANCRO PEDIÁTRICO:
FATORES E CONTEXTOS DE INFLUÊNCIA

Tese de Doutoramento em Psicologia, especialidade em Psicologia da Saúde, orientada por Professora Doutora Carla Crespo, Professora Doutora Maria Cristina Canavarro e Professora Doutora Anne E. Kazak e apresentada à Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

Setembro 2016



UNIVERSIDADE DE COIMBRA

Título	Adaptação individual e familiar no cancro pediátrico: Fatores e contextos de influência
Title	Individual and family adaptation in pediatric cancer: Contributing factors and contexts
Autor	Susana Isabel Fernandes Santos
Orientação científica	<p>Carla Alexandra Mesquita Crespo, Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa</p> <p>Maria Cristina Cruz Sousa Portocarrero Canavarro, Faculdade de Psicologia e Ciências da Educação da Universidade de Coimbra</p> <p>Anne E. Kazak, Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children's Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, Sidney Kimmel Medical College of Thomas Jefferson University</p>
Domínio científico	Psicologia, especialidade em Psicologia da Saúde
Instituição de acolhimento	<p>Linha de investigação "Relações, Desenvolvimento & Saúde" do Centro de Investigação do Núcleo de Estudos e Intervenção Cognitivo-Comportamental (Unidade I&D) da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra</p>
Instituição de acolhimento para estágio de investigação	<p>Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children's Health System, A. I. duPont Hospital for Children, Wilmington, Delaware, United States</p> <p>2 de março a 28 de agosto de 2014</p>
Instituição que confere o grau	Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra

Este trabalho foi apoiado por uma Bolsa de Doutoramento concedida pela Fundação para a Ciência e Tecnologia [SFRH/BD/80777/2011].

FCT Fundação para a Ciência e a Tecnologia

MINISTÉRIO DA CIÊNCIA, TECNOLOGIA E ENSINO SUPERIOR



Agradecimentos

Apesar do presente trabalho ser o reflexo da minha dedicação, a sua realização não poderia ter sido possível sem o contributo de pessoas muito especiais. É a elas que expresso os meus sinceros agradecimentos, embora as palavras não captem toda a minha gratidão.

Em primeiro lugar, queria agradecer às minhas orientadoras:

À Professora Doutora Carla Crespo, agradeço a possibilidade de investir nesta área e a confiança que depositou em mim desde o início. Agradeço-lhe a orientação atenta, a disponibilidade constante e o seu rigor sereno que me dirige sempre ao caminho certo. Não poderia deixar de agradecer a sua amizade, compreensão, as palavras que, em momentos tão importantes da minha vida, fizeram todo o sentido e o empenho de me querer ver subir alto, tão alto como a Torre *Eiffel*.

À Professora Doutora Cristina Canavarro, pela orientação científica rigorosa, pelas inúmeras aprendizagens e, ainda, pelas inúmeras oportunidades de desenvolvimento de competências científicas, clínicas e de relacionamento interpessoal que me proporcionou ao longo deste percurso. Agradeço-lhe, ainda, pela possibilidade de, ao longo deste último ano, poder ter abraçado a componente clínica. Agradeço, também, a sua amizade e as sábias palavras que sempre me transmitiu.

I wish to thank Professor Anne E. Kazak for being my mentor and for the opportunity to carry out a research internship at Nemours Children’s Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics. I am also grateful for the rigor and constant incentive: *It is really very close to ready!*

Agradeço ao Dr. Armando Pinto (Diretor do Serviço de Pediatria do Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial), à Dra. Fátima Heitor (Diretora do Serviço de Oncologia Pediátrica, do Hospital Pediátrico de Coimbra, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial) e ao Professor Doutor Alberto António Moreira Caldas Afonso (Diretor do Serviço de Pediatria do Centro Hospitalar de São João, Entidade Pública Empresarial) por terem criado as condições necessárias para que este projeto se concretizasse e pelo interesse que por ele demonstraram. Deixo um especial agradecimento ao Dr. Armando Pinto pelo contacto mais direto e à forma generosa e atenta como colaborou no projeto e à revisão atenta da primeira secção do primeiro capítulo.

Agradeço aos colegas da Linha de Investigação “Relações, Desenvolvimento & Saúde” do Centro de Investigação do Núcleo de Estudos e Intervenção Cognitivo-Comportamental (Unidade I&D) da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra – Alexandra Martins, Ana Fonseca, Anabela Araújo Pedrosa, Bárbara Nazaré, Carlos Carona, Cláudia Melo, Fabiana Monteiro, Helena Moreira, Joana Pereira, João Pedro Leitão, Marco Pereira, Maria João Gouveia, Mariana Moura-Ramos, Maryse Guedes, Neuza Silva, Paula Carvalho, Raquel Pires, Roberta Frontini, Sara Albuquerque, Sofia Gameiro, Sónia Silva,

Stephanie Alves, Teresa Mendes, Tiago Paredes e Vânia Gonçalves– não só as partilhas de conhecimento como as sugestões úteis na revisão de alguns dos artigos. À Doutora Mariana Moura-Ramos e ao Doutor Marco Pereira agradeço, ainda, a prontidão e o rigor na resposta às minhas dúvidas.

Um agradecimento especial à Ágata Salvador e à Ana Rita Martins, que eram, na altura, alunas do último ano do Mestrado Integrado em Psicologia na Faculdade, pela contribuição nas tarefas relacionadas com a recolha de amostra. Também gostaria de expressar o meu agradecimento à Maria Leonor Durães e à Mónica Baltazar, na altura alunas do primeiro ano do Mestrado Integrado em Psicologia na Faculdade, bem como à Ana Afonso, à Ana Tavares, à Mariana Fernandes e à Marta Correia, na altura alunas do último ano do Mestrado Integrado em Psicologia, na Faculdade de Psicologia da Universidade de Lisboa pela competência com que transcreveram grande parte das entrevistas.

Ficarei para sempre grata à Ágata Salvador, Mariana Fernandes, à Marta Santos Nunes, à Marina Melo, ao João Afonso Duarte e, em especial, ao Nélcio Brazão não só pela amizade e disponibilidade de se desviarem dos seus caminhos para me apoiarem, como pela revisão atenta de um dos capítulos. Agradeço, ainda, à Ana Xavier, à Elisabete Bento e à Diana Silva, com quem partilhei esta reta final; obrigada pelas palavras de incentivo.

Um especial obrigada ao Professor Doutor Daniel Rijo, à Professora Doutora Isabel Narciso, à Professora Doutora Luísa Barros pelo apoio e encorajamento. Agradeço, ainda, à Professora Doutora Luana Ferreira e à Professora Doutora Rita Francisco, que me inspiraram na parte qualitativa.

I wish to thank Professor Melissa Alderfer, Professor Lamia Barakat, and Professor Tim Wysocki for the meetings and trainings. I must also thank Erin Hall, Francisco Argueta-Ortiz, Julia Price, Stephen Didonato, and Mary McElwain, who were remarkable colleagues at Nemours. I also wish to thank Brian Owens, Dallas Bennett, Marilyn DeGannes, Nipa Patel, Nithya Rao, and Sravya Kanneganti for all the support at Wilmington.

Agradeço ainda aos meus amigos a paciência com que acompanharam este percurso e as palavras de incentivo: Ana Antunes, Ana Batista, Ana Patrícia Santos, André Sousa, Carla Ferreira, Carolina Oliveira, Eva Ferreira, Filipa Batista, Gisela Gambini, Joana Pedro, João Ferreira, Juliana Pedro, Mafalda Laranjo, Marta Simões, Paula Salgueirinho, Raquel Nogueira, Rita Jerónimo, Simone Silva, Susana Rodrigues e Tiago Miguel.

Agradeço aos meus pais, irmã, avós, padrinhos, primos e afilhada pelo apoio, carinho e reforço constantes.

As minhas últimas palavras de agradecimento vão para todas as crianças e famílias que aceitaram colaborar, de forma voluntária, neste projeto; sem eles este trabalho não seria possível. Espero, sinceramente, que os resultados do presente estudo possam contribuir para uma melhor compreensão e resposta aos múltiplos desafios que estas famílias enfrentam.

“Teve que ser assim. (...) As famílias ficam reféns da dinâmica do hospital e da evolução da situação clínica com todos os imponderáveis associados. Nunca mais conseguem fazer nada sem contarem com a doença, com as variações de estado, para melhor e para pior, do esperado e do inesperado. É uma grande prova de resistências que só o amor à vida e aos seus consegue ajudar a passar.” (Armando Pinto, 2010, p. 13, in Vivências de um médico oncologista pediátrico).

Índice

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS	XXI
RESUMO	XXIII
ABSTRACT.....	XXV
NOTA INTRODUTÓRIA.....	XXVII
CAPÍTULO I ENQUADRAMENTO TEÓRICO.....	3
SECÇÃO I CANCRO PEDIÁTRICO: CONSIDERAÇÕES GERAIS	3
1. Definição, etiologia e classificação	3
2. Epidemiologia.....	4
3. Tratamento.....	6
4. Fases do cancro pediátrico.....	10
SECÇÃO II CANCRO PEDIÁTRICO: UM CONTEXTO DE ADAPTAÇÃO	11
1. A vivência individual e familiar do cancro pediátrico	11
2. A adaptação	13
2.1. Conceito chave nas condições crónicas de saúde	13
2.2. A adaptação no contexto do cancro pediátrico: Síntese crítica da literatura	13
2.2.1. Modelo orientado para a patologia vs. Modelo baseado na normatividade	14
2.2.1.1. Adaptação vs. Ajustamento	15
2.3. Principais indicadores de adaptação individual	16
2.3.1. Adaptação dos pais	16
2.3.1.1. Sintomatologia psicopatológica	16
2.3.1.2. Qualidade de vida (QdV).....	17
2.3.2. Adaptação das crianças	17
2.3.2.1. Ansiedade.....	18
2.3.2.2. Qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS).....	18
2.4. Adaptação familiar	19
2.4.1. Família como sistema	20
2.4.1.1. Rituais familiares.....	20
2.4.1.2. Coesão familiar	21
3. Fatores de influência para a adaptação individual e familiar	22
3.1. Fatores clínicos	22
3.1.1. Intensidade do tratamento.....	22
3.1.2. Tempo desde o diagnóstico	23
3.2. Fatores individuais	24

3.2.1. Sexo	24
3.2.2. Esperança	24
3.3. Fatores familiares	25
3.3.1. Relação de casal	25
3.3.1.1. Vinculação amorosa evitante/ansiosa	26
3.3.2. Funcionamento familiar	27
3.3.2.1. Rituais familiares.....	28
3.3.2.2. Coesão familiar	29
3.3.3. Sobrecarga financeira	29
3.3.4. Nível socioeconómico	30
4. Síntese integrativa: Uma abordagem socioecológica da adaptação	31
5. Lacunas da investigação no contexto de adaptação ao cancro pediátrico	35
5.1. Questões metodológicas	35
5.1.1. Variabilidade das fases do cancro pediátrico	35
5.1.2. Instrumentos de avaliação utilizados na avaliação da adaptação individual das crianças	36
5.1.2.1. Medidas gerais vs. medidas genéricas, medidas específicas para o cancro pediátrico	36
5.1.2.2. Hetero-relatos vs. auto-relatos	37
5.1.3. Desenho metodológico dos estudos	37
5.1.3.1. Estudo qualitativo	37
5.1.3.2. Não-independência da diade crianças/pais	38
5.1.3.3. Estudo dos processos de moderação e dos mecanismos	38
5.2. Temas e conteúdos	39
5.2.1. Adaptação individual	39
5.2.1.1. Fatores clínicos	39
5.2.1.2. Fatores individuais e familiares	39
5.2.2. Adaptação familiar	40
CAPÍTULO II ENQUADRAMENTO METODOLÓGICO	43
1. Apresentação do projeto de investigação	43
2. Objetivos do projeto de investigação	43
3. Opções metodológicas	46
3.1. Desenho da investigação.....	46
3.2. Participantes e procedimentos de recolha da amostra.....	49
3.2.1. Procedimento de recolha da amostra.....	49
3.2.2. Participantes	51
3.3. Métodos de recolha de informação	54
3.3.1. Ficha de dados	56
3.3.1.1. Características sociodemográficas e clínicas	56
3.3.2. Questionários.....	56
3.3.2.1. Intensidade do tratamento (Médicos)	57

3.3.2.2. <i>Esperança (Pais)</i>	58
3.3.2.3. <i>Esperança (Crianças)</i>	58
3.3.2.4. <i>Vinculação amorosa (Pais)</i>	58
3.3.2.5. <i>Significado dos rituais familiares (Pais e crianças)</i>	59
3.3.2.6. <i>Coesão familiar (Pais e crianças)</i>	59
3.3.2.7. <i>Sobrecarga financeira (Pais)</i>	60
3.3.2.8. <i>Sintomatologia psicopatológica (Pais)</i>	60
3.3.2.9. <i>QdV (Pais)</i>	61
3.3.2.10. <i>Ansiedade (Crianças)</i>	61
3.3.2.11. <i>QdVrS genérica (Crianças)</i>	62
3.3.2.12. <i>QdVrS específica (Crianças)</i>	62
3.3.3. <i>Entrevista semiestruturada</i>	63
3.3.3.1. <i>Rituais Familiares (Pais)</i>	64
3.4. <i>Análise de dados</i>	64
3.4.1. <i>Análise quantitativa dos dados</i>	65
3.4.1.1. <i>A criança-pais como unidade de análise (análises diádicas)</i>	65
3.4.1.2. <i>Análises de poder estatístico</i>	66
3.4.1.3. <i>Cálculo da magnitude do efeito</i>	66
3.4.2. <i>Análise qualitativa dos dados</i>	67
3.4.2.1. <i>Grounded Theory</i>	67
4. Princípios éticos	68
CAPÍTULO III ESTUDOS EMPÍRICOS	73
SECÇÃO I INTENSIDADE DO TRATAMENTO E QDVRS NO CANCRO PEDIÁTRICO: RESULTADOS DA VERSÃO PORTUGUESA DA ESCALA DE CLASSIFICAÇÃO DA INTENSIDADE DO TRATAMENTO 3.0	73
[História e contributo do Estudo I]	73
SECÇÃO II PSYCHOMETRIC STUDY OF THE EUROPEAN PORTUGUESE VERSION OF THE PEDSQL 3.0 CANCER MODULE	91
[História e contributo do Estudo II]	91
SECÇÃO III FAMILY RITUALS AND QUALITY OF LIFE IN CHILDREN WITH CANCER AND THEIR PARENTS: THE ROLE OF FAMILY COHESION AND HOPE	124
[História e contributo do Estudo III]	124
SECÇÃO IV FAMILY RITUALS, FINANCIAL BURDEN AND MOTHERS' ADJUSTMENT IN PEDIATRIC CANCER	143
[História e contributo do Estudo IV]	143

SECÇÃO V PARENTS' ROMANTIC ATTACHMENT PREDICTS FAMILY RITUAL MEANING AND FAMILY COHESION AMONG PARENTS AND THEIR CHILDREN WITH CANCER ...	159
[História e contributo do Estudo V]	159
SECÇÃO VI FAMILY RITUALS WHEN CHILDREN HAVE CANCER.....	181
[História e contributo do Estudo VI]	181
[Nota do Investigador]	181
CAPÍTULO IV DISCUSSÃO GERAL	207
1. Síntese e discussão integrada dos principais resultados	208
1.1. Adaptação individual.....	208
1.1.1. Estudos psicométricos de instrumentos relevantes para o contexto português.....	208
1.1.1.1. <i>O ITR 3.0</i>	209
1.1.1.2. <i>O PedsQLTM 3.0 Cancer Module</i>	210
1.1.2. Determinantes da adaptação individual	211
1.2. Funcionamento familiar	217
1.2.1. Determinantes do funcionamento familiar.....	217
2. Pontos fortes e limitações do estudo	221
2.1. Pontos fortes	221
2.2. Limitações e pistas para investigações futuras.....	223
3. Implicações para a investigação e para a prática clínica	224
3.1. Implicações para a investigação	224
3.2. Implicações para a prática clínica	226
3.2.1. Identificação das crianças e dos pais com maior risco de apresentar dificuldades de adaptação.	226
3.2.2. Intervenção psicológica.....	227
REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS	231
ANEXOS	257
ANEXO A PARECER DAS COMISSÕES DE ÉTICA	257
A1. Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial [IPOPFG, EPE]	257
A2. Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial [HP, CHUC, EPE]	258
A3. Centro Hospitalar de São João, Entidade Pública Empresarial [CHSJ, EPE]	259
ANEXO B CONSENTIMENTOS INFORMADOS	260

B1.1. Estudo qualitativo (pais de crianças ≤ 12 anos)	260
B1.2. Estudo qualitativo (pais de crianças ≥ 13 anos)	261
B2.1. Estudo quantitativo (pais de crianças ≥ 13 anos).....	262
B2.2. Estudo quantitativo (pais de crianças ≤ 12 anos).....	263
B2.3. Estudo quantitativo (crianças ≥ 13 anos).....	264
ANEXO C FICHA DE DADOS SOCIODEMOGRÁFICOS E CLÍNICOS.....	265
ANEXO D GUIÃO DA ENTREVISTA	266

Índice de quadros

Capítulo I

Quadro 1	Grupos de diagnóstico de acordo com a ICC-3	4
----------	---	---

Capítulo II

Quadro 1	Objetivos específicos da investigação	45
Quadro 2	Critérios de inclusão e de exclusão por estudo	50
Quadro 3	Variáveis/temas-chave e métodos de recolha de informação por estudo	55

Capítulo III | Secção I

Tabela 1	<i>Características Sociodemográficas e Clínicas da Amostra</i>	79
Tabela 2	<i>Análise de Variância (ANOVA) Unifactorial para Comparação de Médias de QdVrS nos Três Grupos de Intensidade do Tratamento</i>	84

Capítulo III | Secção II

Table 1	<i>Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample</i>	96
Table 2	<i>Descriptive and Item Analyses of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module (N = 332)</i>	101
Table 3	<i>Convergent validity of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module</i>	102
Table 4	<i>Internal Consistency and Test-retest Reliability of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module</i>	103

Capítulo III | Secção III

Table 1	<i>Sociodemographic and clinical characteristics of the sample (N = 389 dyads)</i>	131
Table 2	<i>Descriptive Statistics and Matrix of Inter-correlations Among Study Variables for Parents and Children</i>	135
Table 3	<i>The Unstandardized Coefficients and Standard Errors for All Parameters, and the Bias-corrected Bootstrap Confidence Intervals for the Indirect Effects</i>	136

Capítulo III | Secção IV

Table 1	<i>Descriptive Statistics and Bivariate Pearson's Correlations Among Study Variables</i>	150
Table 2	<i>Hierarchical Multiple Regression Predicting Anxiety and Depression Symptoms From Financial Burden and Family Ritual Meaning</i>	151

Capítulo III | Secção V

Table 1	<i>Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample at T1 (N = 58 dyads)</i>	165
Table 2	<i>Means, Standard Deviations, Actual Range, Cronbach's Alphas and Intercorrelations Among Study Variables for Parents and Children</i>	169
Table 3	<i>Hierarchical Multiple Regression Analyses for Variables Associated with T2 Parents'/Children' Family Ritual Meaning and T2 Parents'/Children' Family Cohesion</i>	170

Capítulo III | Secção VI

Table 1	<i>Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample (N = 19 mothers)</i>	186
Table 2	<i>Description of the Categories And Subcategories</i>	189
Table 3	<i>Exemplar Quotes for Each Function of Family Rituals</i>	191
Table 4	<i>Exemplar Quotes for Each Function of Family Rituals (continued)</i>	194

Índice de figuras

Capítulo I

Figura 1	Novos casos de cancro registados por grupos etários com base nos dados disponíveis no Registo Oncológico Nacional 2010.	5
Figura 2	Fases do cancro pediátrico	10
Figura 3	Modelo Socioecológico de Adaptação e Mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009; reproduzido com autorização dos autores).	33
Figura 4	Breve caracterização dos diferentes tipos de instrumentos de avaliação da QdVrS (geral, genérica e específica).	36

Capítulo II

Figura 1	Mapa metodológico do projeto	47
Figura 2	Desenho da investigação	48
Figura 3	Representação esquemática da participação de crianças e pais	53

Capítulo III | Secção I

Figura 1	Versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0	81
-----------------	---	----

Capítulo III | Secção II

Figura 1	Fit indexes for the model: $\chi^2_{316} = 590.80$; $p < .001$; CFI = .91; RMSEA = .05. Values shown in the figure represent completely standardized regression weights of the factor loadings. $**p < .01$.	102
-----------------	---	-----

Capítulo III | Secção III

Figura 1	Proposed mediation model (individual pathways are solid lines and dyadic pathways are dashed lines). The dashed lines behind the boxes represent direct dyadic effects of parents' family ritual meaning to children' quality of life and children' family ritual meaning to parents' quality of life.	129
Figura 2	Trimmed model (non-significant paths are not represented). The path model shows the indirect effects of family ritual meaning on parents' and children' QoL via family cohesion and hope. <i>Note.</i> Fit indices for the model were as follows: $\chi^2(11, N = 389) = 15.87, p = .15$; CFI = .99; RMSEA = .03. Bold figures represent standardized coefficients. For simplicity, covariances (found in Table III) are not depicted; $***p < .001$; $**p < .01$; $*p < .05$.	134

Capítulo III | Secção IV

Figura 1	The moderating effect of family ritual meaning on the association between financial burden and anxiety symptoms.	152
-----------------	--	-----

Capítulo III | Secção V

Figura 1	a and b) Models depicting the mediating effects of T2 parents'/children's family ritual meaning on the links between T1 parents' avoidant attachment and T2 parents'/children's family cohesion, controlling for T1 parents' anxious attachment and T1 time since primary diagnosis. <i>Note.</i> The values inside parentheses represent the independent variable's direct effect on the dependent variable after controlling for the mediator. $***p < .001$; $**p < .01$; $*p < .05$.	172
-----------------	---	-----

Capítulo III | Secção VI

Figura 1	Changes in family rituals during the first 4 months after diagnosis	190
-----------------	---	-----

Lista de abreviaturas e siglas

ADN	Ácido desoxirribonucléico
AHS	Adult Hope Scale
APA	American Psychological Association
CHS	Children Hope Scale
CHSJ, EPE	Centro Hospitalar de São João, Entidade Pública Empresarial
DCGM-12	DISABKIDS Chronic Generic Measure
DGS	Direção-Geral da Saúde
ECR-RS	Experiences in Close Relationships-Relationship Structures Questionnaire
EUA	Estados Unidos da América
FES	Family Environment Scale
FRQ	Family Ritual Questionnaire
HADS	Hospital Anxiety and Depression Scale
HP, CHUC, EPE	Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial
ICCC-3	International Classification Childhood Cancer
ICD	International Classification of Diseases
ICD-O-3	International Classification of Diseases for Oncology
IOF	Impact on Family Scale
IPOCFG, EPE	Instituto Português de Oncologia de Coimbra Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial
IPOLF, EPE	Instituto Português de Oncologia de Lisboa Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial
IPOPFG, EPE	Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial
ITR 3.0	Intensity of Treatment Rating Scale 3.0
LPCC	Liga Portuguesa Contra o Cancro
M1	Primeiro momento de avaliação
M2	Segundo momento de avaliação
OMS	Organização Mundial de Saúde
OPP	Ordem dos Psicólogos Portugueses
PAT	Psychosocial Assessment Tool
PedsQL™ 3.0	Pediatric Quality of Life Inventory™ 3.0
QdV	Qualidade de vida
QdVrS	Qualidade de vida relacionada com a saúde
RCMAS-2	Revised Children's Manifest Anxiety Scale - Second Edition
ROPP	Registo Oncológico Pediátrico Português
ROR-Centro	Registo Oncológico Regional do Centro
ROR-Sul	Registo Oncológico Regional do Sul
RORA	Registo Oncológico Regional dos Açores
RORENO	Registo Oncológico Regional do Norte
SIOP	International Society of Pediatric Oncology
SIOPE	European Society of Paediatric Oncology
TBI	Irradiação corporal total
WHO	World Health Organization

Resumo

Introdução: O cancro pediátrico é conceptualizado com um acontecimento indutor de *stress* que ultrapassa o nível individual, com desafios e implicações não só para a criança, mas também para os pais e família como um todo. Ainda que este acontecimento esteja associado a um conjunto de fatores indutores de *stress* (p. ex. protocolo terapêutico intensivo, efeitos secundários e/ou sequelas, frequentes deslocações ao Hospital, interrupções e alterações nas rotinas individuais e familiares) a literatura tem evidenciado grande variabilidade ao nível da adaptação individual e familiar. Esta inconsistência pode dever-se a questões metodológicas ou à negligência de outros fatores significativos que podem interferir no processo de adaptação. Neste contexto, ancorada numa abordagem socioecológica, mas especificamente no modelo socioecológico de adaptação e mudança, esta investigação procurou compreender a adaptação individual e familiar nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Especificamente os objetivos deste estudo foram: (1) analisar as propriedades psicométricas de dois instrumentos específicos para o cancro pediátrico, o Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 [ITR 3.0] e o Pediatric Quality of Life InventoryTM Cancer Module 3.0 [PedsQLTM Cancer Module 3.0]; (2) investigar o papel de fatores clínicos, individuais e familiares no processo de adaptação individual e familiar; (3) compreender as significações e a vivência dos rituais familiares na perspetiva das mães.

Metodologia: Assente num desenho metodológico misto, a presente investigação foi constituída por cinco estudos quantitativos, quatro transversais e um longitudinal, e um estudo qualitativo transversal. A amostra foi constituída por 448 famílias, mais especificamente por 129 crianças no Estudo I, 332 crianças no Estudo II, 389 díades de crianças/pais no Estudo III, 244 mães no Estudo IV, 58 díades de crianças/pais no Estudo V e 18 mães no Estudo VI. As crianças reportaram sobre esperança, ansiedade, qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS) genérica e específica. Além de fornecerem dados sociodemográficos e clínicos, os pais preencheram questionários para avaliar a esperança, a vinculação amorosa, a sobrecarga financeira, a sintomatologia ansiosa/depressiva e a qualidade de vida (QdV). Crianças e pais avaliaram a coesão familiar e o significado dos rituais familiares. Foram igualmente examinados os significados e a vivência dos rituais familiares através da realização de entrevistas semiestruturadas às mães. Os médicos oncologistas pediátricos classificaram a intensidade do tratamento.

Resultados: O ITR 3.0 e a versão de auto-relato do PedsQLTM Cancer Module 3.0 demonstraram ser instrumentos fiáveis e válidos para avaliar a intensidade do tratamento e a QdVrS específica. A QdVrS genérica das crianças variou de acordo com a intensidade do tratamento. As crianças do grupo de tratamentos moderadamente intensivos (nível 2)

apresentaram melhor QdVrS genérica do que as crianças do grupo de tratamentos muito intensivos e de máxima intensidade (níveis 3 e 4). O significado dos rituais familiares estava positivamente associados à QdV/QdVrS específica da díade através da coesão familiar e da esperança, independentemente da idade do paciente, da fase do cancro pediátrico e do nível socioeconómico da família. O significado dos rituais familiares (níveis mais elevados) amorteceu o efeito da sobrecarga financeira na sintomatologia ansiosa das mães, mas não na sintomatologia depressiva. A dimensão evitamento da vinculação amorosa no início da fase de tratamento mostrou ser um preditor de níveis inferiores de funcionamento familiar (rituais e coesão familiar) para pais e crianças, seis meses depois. Por fim, foram encontrados 12 funções associadas aos rituais familiares que se encontraram ativas ou não em função dos dois padrões distintos de mudança na vivência dos rituais familiares caracterizados pela perda ou transformação.

Conclusões: Os resultados apoiam a utilização de instrumentos específicos para o cancro pediátrico e identificam um conjunto de determinantes para a adaptação individual e familiar que contribuem para explicar a diversidade de resultados. No contexto dos cuidados de saúde, é importante ter em conta esta heterogeneidade de pacientes e famílias e adequar as práticas. Crianças e pais que apresentem marcadores de risco (intensidade do tratamento e a sobrecarga financeira) deverão ser sinalizados para intervenção. Por fim, a identificação de variáveis potencialmente modificáveis com impacto na adaptação (esperança, vinculação, significado dos rituais familiares e a coesão familiar) parecem ser elementos chave da intervenção psicológica individual e familiar no cancro pediátrico.

Palavras-chave: cancro pediátrico; coesão e rituais familiares; esperança; intensidade do tratamento; qualidade de vida; sintomatologia psicopatológica.

Abstract

Introduction: Pediatric cancer is conceptualized as a stress-inducing event which spreads beyond the individual dimension, with challenges and repercussions not only for the child, but also for the parents and the family as a whole. Although this event is associated to stress-inducing factors (e.g. intensive treatment protocol, side effects and/or sequelae, frequent visits to the hospital, disruption of and changes to individual and family routines), the literature reveals great variability in terms of individual and family adaptation. This inconsistency may be the result of methodological issues or of overlooking other significant factors which could affect the adaptation process. Therefore, this research, drawing on a social-ecological approach - more specifically, the social-ecological model of adaptation and change-, sought an understanding of individual and family adaptation in the different treatment and post-treatment stages. The specific objectives of this study were: (1) analyzing the psychometric characteristics of two specific instruments for pediatric cancer: the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 [ITR 3.0] and the Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module 3.0 [PedsQL™ Cancer Module 3.0]; (2) researching the role of clinical, individual and family factors in the individual and family adaptation process; and (3) understanding the meanings and experiences of family rituals from the mothers' perspective.

Methodology: Supported by a mixed methodological design, this research comprised five quantitative studies, four cross-sectional and one longitudinal, and one qualitative cross-sectional study. The sample consisted of 448 families, more specifically, 129 children in Study I, 332 children in Study II, 389 dyads of children-parents in Study III, 244 mothers in Study IV, 58 dyads of children-parents in Study V, and 18 mothers in Study VI. Children reported on hope, anxiety, and generic and specific health-related quality of life (HRQoL). Besides providing social-demographic and clinical data, the parents filled out questionnaires to assess hope, emotional attachment, financial burden, anxious/depressive symptomatology, and quality of life (QoL). Children and parents assessed family cohesion and the meaning of family rituals. The meanings and experiences of family rituals were also analyzed, by conducting semi-structured interviews with mothers. Pediatric oncologists classified treatment intensity.

Outcomes: The ITR 3.0 and the self-assessment version of the PedsQL™ Cancer Module 3.0 proved to be reliable and valid instruments to assess treatment intensity and specific HRQoL. The generic HRQoL of children varied according to treatment intensity. The children of the moderately intense treatment group (level 2) presented better generic HRQoL than the children of the very intense treatment and the most intense treatment groups (levels 3 and 4). The meaning of family rituals was positively associated to the specific QoL/HRQoL of the

dyads, through family cohesion and hope, regardless of the patient's age, the stage of pediatric cancer, and the family's social-economic level. The meaning of family rituals (higher levels) buffered the effect of the financial burden on the mother's anxious symptomatology, but not on depressive symptomatology. Parents' romantic attachment avoidance in the beginning of the treatment stage predicted lower levels of family functioning (family rituals and cohesion) for parents and children six months later. Finally, 12 functions associated with family rituals were found, which were active or inactive depending on the two different change patterns- loss or transformation- of the family ritual experience.

Conclusions: The study outcomes support the use of specific instruments for pediatric cancer, and allowed for the identification of factors explaining individual and family adaptation. In a healthcare context, it is important to take into account this heterogeneity of patient and family adaptation and to accordingly choose suitable practices. Children and parents who present risk markers (treatment intensity and financial burden) must be signaled for intervention. Lastly, the identification of potentially modifiable variables with an impact on adaptation (hope, attachment, meaning of family rituals, and family cohesion) seems to be a key element in the psychological intervention in individuals and families with pediatric cancer.

Keywords: pediatric cancer; family cohesion and rituals; hope; treatment intensity; quality of life; psycho-pathological symptomatology

Nota introdutória

O cancro pediátrico é um termo genérico para um vasto grupo de doenças mundialmente reconhecidas como uma das principais causas de mortalidade em idades pediátricas (S. L. Murphy, Xu, & Kochanek, 2013; Saúde., 2015). Anualmente, cerca de 300.000 crianças são diagnosticadas com cancro (International Agency for Research on Cancer, 2016, February 15). Em Portugal, os mais recentes dados estatísticos apontam para cerca de 407 novos casos (RORENO, 2016).

Os avanços terapêuticos nesta área têm conduzido a taxas de sobrevivência superiores a 80% (E . Steliarova-Foucher & Frazier, 2014). No entanto, a complexidade, a duração e a intensidade do protocolo terapêutico, dos efeitos secundários e das sequelas a longo prazo têm um impacto significativo na criança (Rodgers, Withycombe, & Hockenberry, 2016), bem como na família (Gerhardt, Salley, & Lehmann, 2016). Neste contexto, tem-se verificado uma crescente preocupação médica não apenas com a sobrevivência, mas com a qualidade da sobrevivência, sobretudo com as questões da qualidade de vida (QdV; Vassal et al., 2016).

Além das exigências do tratamento e decorrentes deste (Rodgers et al., 2016), o cancro pediátrico associa-se a um conjunto de desafios específicos quer para a criança, quer para a família, nomeadamente, disrupções e alterações nas rotinas familiares, encargos financeiros, risco de morte ou da doença recidivar nas fases de tratamento e de pós-tratamento (Gerhardt et al., 2016). Torna-se, por isso, relevante avaliar a QdV e outros indicadores de adaptação individual e familiar numa abordagem abrangente e complexa que integre o contributo da Psicologia de modo a delinear estratégias de intervenção que possam contribuir para uma melhor adaptação individual e familiar a esta doença que já tem sido apontada como um “convidado indesejado” na vida familiar (A. E. Kazak, personal communication, October 17, 2013).

No presente trabalho centramo-nos na adaptação individual das crianças e dos pais nas fases de tratamento e de pós-tratamento e na adaptação familiar na fase de tratamento. O modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989), baseado nas grelhas conceptuais da Psicologia Pediátrica e da Psicologia da Família, foi o referencial teórico eleito para a concetualização da adaptação. Ancorados neste modelo, procurámos dar resposta a algumas lacunas temáticas e metodológicas no sentido de compreender quais os determinantes clínicos, individuais e familiares para a adaptação individual e familiar.

A presente tese é apresentada sob a forma de compilação de um conjunto de seis artigos empíricos, que foram planificados para dar resposta a questões e objetivos específicos. Dos seis estudos empíricos, cinco encontram-se publicados em revistas de reconhecido mérito internacional (**Estudo I, II, III, IV e V**) e um encontra-se submetido para publicação (**Estudo VI**).

A tese encontra-se organizada em quatro capítulos. O **capítulo I | Enquadramento Teórico** constitui uma revisão do atual “estado da arte” sobre a adaptação individual e familiar nas fases de tratamento e de pós-tratamento do cancro pediátrico e encontra-se dividido em duas secções. Na primeira secção deste capítulo apresentamos algumas considerações mais gerais sobre a doença (definição, etiologia e classificação, epidemiologia), o tratamento e as fases do cancro pediátrico. Iniciamos a segunda secção deste capítulo com os principais desafios da vivência do cancro pediátrico para a criança, pais e família, para de seguida refletirmos acerca da adaptação e dos seus fatores de influência. Por fim, apresentamos uma síntese integrativa à luz da abordagem socioecológica da adaptação e salientamos as lacunas no conhecimento atual que orientaram a definição dos objetivos da nossa investigação.

O **Capítulo II | Enquadramento Metodológico** incide sobre a caracterização geral do projeto de investigação, os seus objetivos e as opções metodológicas subjacentes à sua concretização (desenho da investigação, participantes e procedimentos de recolha da amostra, métodos de recolha de informação, análise dos dados). Por fim, apresenta-se uma breve referência à forma como os princípios éticos foram tidos em conta ao longo de todo o processo de investigação.

O **Capítulo III | Estudos Empíricos** é composto por seis secções que representam os seis estudos empíricos que compõem este trabalho. A anteceder a apresentação de cada estudo empírico é apresentada uma breve sinopse acerca da sua história e do seu contributo. O **Estudo I | Intensidade do tratamento e QdVrS no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0** teve como objetivos apresentar as propriedades psicométricas do ITR 3.0, bem como investigar a influência da intensidade do tratamento na QdVrS genérica na fase de tratamento. O **Estudo II | Psychometric study of the European Portuguese version of the PedsQL 3.0 Cancer Module** procurou apresentar as propriedades psicométricas do questionário que avalia a QdVrS específica em crianças com cancro nas fases de tratamento e de pós-tratamento. O **Estudo III | Family rituals and quality of life in children with cancer and their parents: The role of family cohesion and hope** pretendeu conhecer os efeitos individuais e *do parceiro* na relação entre os rituais familiares e a QdV/QdVrS específica nas fases de tratamento e de pós-tratamento. O **Estudo IV | Family rituals, financial burden and mothers’ adjustment in pediatric cancer** examinou o papel moderador do significado dos rituais familiares na relação entre a sobrecarga financeira e a sintomatologia psicopatológica das mães nas fases de tratamento e de pós-tratamento. O **Estudo V | Parents’ romantic attachment predicts family ritual meaning and family cohesion among parents and their children with cancer** analisou a adaptação familiar dos filhos e pais ao longo de seis meses na fase de tratamento e examinar o papel das dimensões evitamento e ansiedade de vinculação amorosa na adaptação familiar. O **Estudo VI | Family rituals when children have cancer** procurou aceder aos significados e à

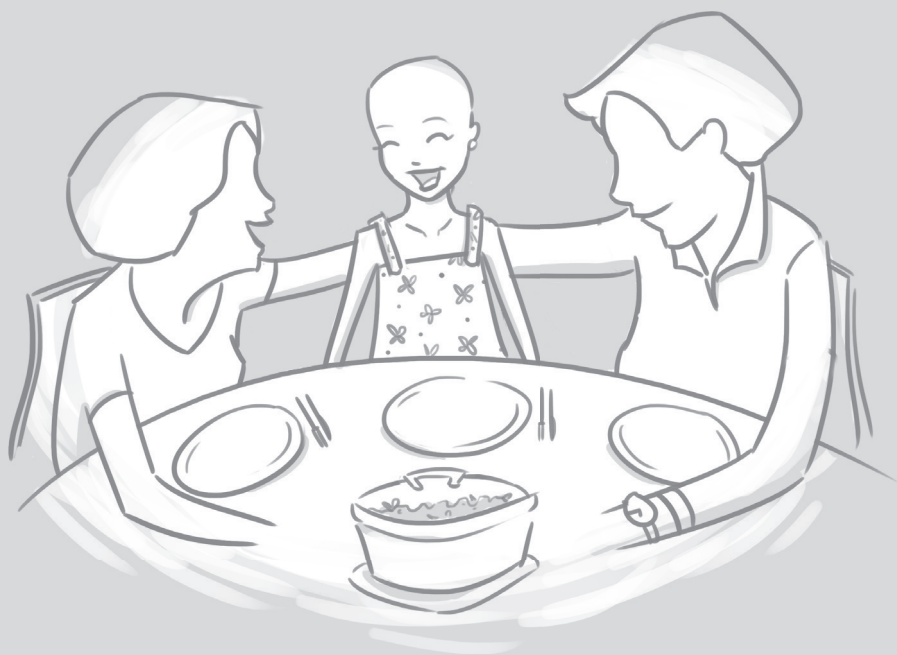
vivência do cancro pediátrico na fase de tratamento por parte das mães, focando-se nos rituais familiares e nas suas funções.

Por fim, o **Capítulo IV |Discussão Geral**, inicia-se com uma síntese e discussão dos principais resultados dos seis estudos empíricos. De seguida, refletimos sobre os pontos fortes e limitações do estudo. Por fim, apresentamos uma reflexão sobre as implicações do presente trabalho, quer para a investigação quer para a prática clínica.

Por fim, todas as obras citadas ao longo do texto são apresentadas na lista final de referências bibliográficas, exceção feita às obras citadas ao longo de cada artigo, que são tratadas de forma independente e, por isso, apresentadas na lista final de referências bibliográficas de cada artigo.

CAPÍTULO I

ENQUADRAMENTO TEÓRICO



Capítulo I | Enquadramento Teórico

Secção I | Cancro pediátrico: Considerações gerais

1. Definição, etiologia e classificação

Cancro (também designado tumor maligno ou neoplasia maligna) é um termo genérico para um vasto grupo de doenças, caracterizadas pelo crescimento descontrolado de células, que tem a capacidade de invadir e/ou metastizar outras partes do corpo, podendo ocorrer em idade pediátrica (World Health Organization [WHO], 2015). O cancro pediátrico difere significativamente do cancro nos adultos, nomeadamente em termos de etiologia e de classificação (E. Steliarova-Foucher & Frazier, 2014).

No que respeita à etiologia, em contraste com o cancro nos adultos, os fatores de risco de natureza ambiental, como a exposição a certos agentes infecciosos ou a radiações ionizantes, estão presentes num número reduzido de casos (Scheurer, Lupo, & Bondy, 2015). Nas crianças¹, os fatores de risco mais bem estabelecidos são de natureza genética, como a mutação num gene ou alterações cromossómicas, contudo só uma pequena percentagem dos casos é explicada por esta via (Makin & Meyer, 2008; Scheurer et al., 2015). Assim, cada vez mais se aponta para uma etiologia multifatorial, que resultaria da interação entre fatores genéticos e ambientais. Nesse sentido, considera-se que a suscetibilidade genética individual pode alterar a resposta ou a reparação de danos causados pela exposição a fatores de risco de natureza ambiental, o que explicaria a génese da maioria dos casos (Makin & Meyer, 2008). Não obstante, a etiologia da grande maioria dos cancros em idade pediátrica permanece desconhecida (Scheurer et al., 2015).

Quanto à classificação, tradicionalmente tem sido feita com base na localização anatómica do tumor primário, de acordo com a *International Classification of Diseases* (ICD; Stiller, 2008). Embora esta classificação seja adequada para os tumores em adultos, não o é para a classificação dos tumores em idade pediátrica. Por exemplo, os tumores sólidos pediátricos constituem um grupo heterogéneo, podendo manifestar-se em várias localizações anatómicas, pelo que é mais apropriado classificar os tumores por grupos de diagnóstico (E. Steliarova-Foucher, Stiller, Lacour, & Kaatsch, 2005; Stiller, 2008). Atualmente na 3ª versão, a *International Classification Childhood Cancer* (ICCC-3; E. Steliarova-Foucher et al., 2005) classifica os tumores em 12 grupos de diagnósticos principais (cf. Quadro 1), que se

¹ Para simplificar, o termo criança será aplicado para designar crianças e adolescentes ao longo de todo o trabalho. A distinção entre crianças e adolescentes será apresentada apenas quando se justificar.

subdividem em 47 subgrupos². A utilização desta classificação padrão para o cancro pediátrico é indispensável para comparar os estudos epidemiológicos em diversas regiões e em diferentes períodos de tempo.

Quadro1 | Grupos de diagnóstico de acordo com a ICCO-3

Grupos de diagnóstico	
I	Leucemias, doenças mieloproliferativas e doenças mielodisplásicas;
II	Linfomas e outras neoplasias reticuloendoteliais;
III	Neoplasias do sistema nervoso central e intracranianas e intraespinhais;
IV	Neuroblastomas e outros tumores de células nervosas periféricas;
V	Retinoblastomas;
VI	Tumores renais;
VII	Tumores hepáticos;
VIII	Tumores ósseos malignos;
IX	Sarcomas dos tecidos moles e extraósseos;
X	Tumores de células germinativas, tumores trofoblásticos e neoplasias das gónadas;
XI	Outras neoplasias epiteliais malignas e outros melanomas malignos;
XII	Outras neoplasias malignas e não especificadas.

2. Epidemiologia

Embora seja raro, o cancro pediátrico é uma importante causa de morte a nível mundial, pelo que os estudos epidemiológicos são essenciais (E . Steliarova-Foucher & Frazier, 2014). Anualmente, em todo o mundo, estima-se que cerca de 215.000 cancros sejam diagnosticados em crianças com menos de 15 anos e 85.000 em pessoas entre os 15-19 anos (International Agency for Research on Cancer, 2016, February 15).

No contexto português, os dados do Registo Oncológico Nacional relativos a 2010³ indicam que foram registados 407 novos casos (209 do sexo masculino) em indivíduos com menos de 20 anos. O grupo etário com maior número de novos casos foi o dos 15 aos 19 anos (cf. Figura 1; RORENO, 2016). De acordo com a Direção-Geral de Saúde (DGS), o cancro foi a primeira causa de morte por doença no grupo etário dos 5-14 e dos 15-24 anos no período de 2009-2013 (DGS, 2015).

² Todos os subgrupos de diagnóstico são especificados com os códigos morfológicos e topográficos da 3ª versão da *International Classification of Diseases for Oncology* (ICD-O-3).

³ O Registo Oncológico Nacional agregou os dados dos Registos Oncológicos Regionais do Norte (RORENO), Centro (ROR-Centro), Sul (ROR-Sul) e Açores (RORA).

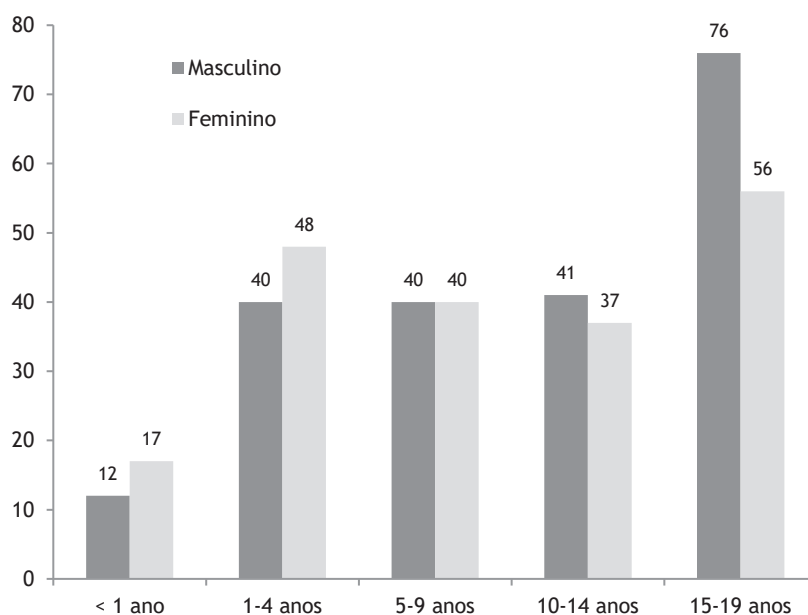


Figura 1 | Novos casos de cancro registados por grupos etários com base nos dados disponíveis no Registo Oncológico Nacional 2010.

As publicações epidemiológicas sobre o cancro pediátrico a nível nacional são escassas. Um dos motivos prende-se com o facto do registo da incidência estar integrado nas estatísticas dos adultos, agrupados pela localização anatómica do tumor primário (cf. Registo Oncológico Nacional 2010; ROENO, 2016). Com vista a colmatar esta limitação encontra-se em desenvolvimento, desde 2011, o Registo Oncológico Pediátrico Português (ROPP), que visa criar um registo nacional de todos os doentes com idade inferior a 18 anos, com base na classificação da ICCC-3. Esta nova plataforma permitirá a integração dos dados de Portugal no registo internacional, possibilitando a comparação com os estudos epidemiológicos de outros países, nomeadamente com os dos Estados Unidos da América (EUA; Caldas, 2014, November).

Relativamente aos EUA, embora o cancro pediátrico represente apenas 1% dos novos casos de cancro, é a principal causa de morte por doença em crianças entre os 5 e os 14 anos (S. L. Murphy et al., 2013). As estimativas mais recentes, para 2014, indicam que cerca de 15.780 crianças (< 20 anos) serão diagnosticadas com cancro, levando à morte de 1.960 crianças (Ward, DeSantis, Robbins, Kohler, & Jemal, 2014). Entre 2009-2013, a taxa de incidência ajustada à idade foi de 194.7 casos por 1.000.000 em indivíduos com menos de 20 anos. Considerando os grupos de diagnóstico da ICCC-3, as leucemias (de 49.4 por 1.000.000) foram mais comuns, seguido das neoplasias do sistema nervoso central (47.2 por 1.000.000) e dos linfomas (24.5 por 1.000.000; Howlader et al., 2016). A incidência variou de acordo com a raça, a idade e o sexo. Foi superior em crianças caucasianas do que entre outros grupos (McLean & Wofford, 2015). Relativamente à idade, os neuroblastomas e os retinoblastomas (tumores embrionários) tiveram o seu pico de incidência durante os dois primeiros anos de

vida, as leucemias (especificamente, a leucemia linfoblástica aguda) foram mais frequentes entre os dois e os cinco anos, os tumores ósseos malignos durante a adolescência e os linfomas no final da mesma (McLean & Wofford, 2015). Quanto ao sexo, a incidência foi maior para o sexo masculino nas crianças com idade inferior a 14 anos (Ward et al., 2014).

Por fim, é de salientar que no período entre 1975 e 2010, a taxa de incidência de cancro pediátrico nos EUA aumentou ligeiramente para uma taxa anual de 0.6%, um padrão semelhante ao observado na Europa. Este aumento foi, contudo, acompanhado de uma redução da taxa de mortalidade em média de 2.1% por ano, resultando numa diminuição global de mais de 50%. Entre 1975 e 2009 registaram-se melhorias substanciais na taxa de sobrevivência a 5 anos para muitos tipos de cancro (Ward et al., 2014). Entre outros fatores, nomeadamente cuidados de suporte (Lissauer & Clayden, 2012), este aumento na taxa de sobrevivência é largamente atribuído aos avanços terapêuticos, promovidos através da colaboração europeia e mundial entre grupos de estudo do cancro pediátrico, nomeadamente da *International Society of Pediatric Oncology* (SIOP) e da *European Society of Paediatric Oncology* (SIOPE; E . Steliarova-Foucher & Frazier, 2014).

3. Tratamento

De acordo com o último relatório mundial sobre cancro, apesar dos progressos registados nos últimos 50 anos, verificam-se diferenças entre os países relativamente à taxa de sobrevivência (E . Steliarova-Foucher & Frazier, 2014), nomeadamente entre os países da Europa. Com o objetivo de minimizar essas diferenças, em 2008, o conselho da SIOPE decidiu apoiar a iniciativa “Communication without barriers” da Fundação Jolanta Kwasniewska e cooperar na elaboração de uma proposta sobre “Padrões Europeus de cuidados às crianças com cancro (*European standards of care for children with cancer*)” que foi apresentada e discutida entre vários representantes dos Estados-membros da União Europeia, na primeira conferência da SIOPE, que decorreu a 14 de outubro de 2009, em Varsóvia.

As orientações descritas nos “Padrões Europeus de cuidados às crianças com cancro”, destinadas aos Estados-membros da União Europeia, procuram criar condições similares, tanto em termos de infraestruturas como das suas práticas (Kowalczyk et al., 2014), por forma a minimizar as diferenças encontradas nas taxas de sobrevivência entre os países europeus. De acordo com as orientações descritas nesse documento as crianças com cancro e seus familiares devem ser acompanhados em centros de excelência e especializados em oncologia pediátrica (Unidades de Oncologia Pediátrica), que terão de obedecer a vários requisitos, de entre os quais: dispor de meios de diagnóstico e de estadiamento adequados, participar em protocolos multicêntricos de tratamento, garantir os cuidados de suporte para os efeitos secundários decorrentes do tratamento e prestar apoio psicossocial à criança e à família. Em contrapartida, a SIOPE faculta à rede de oncologia pediátrica uma plataforma para o desenho dos ensaios clínicos, bem como as informações mais atualizadas sobre os mesmos, e

disponibiliza aconselhamento e orientação para as boas práticas clínicas neste contexto específico, baseados em protocolos multicêntricos de cooperação (Kowalczyk et al., 2014).

Atualmente, em Portugal, existem quatro Unidades de Oncologia Pediátrica, sendo uma no Sul (Instituto Português de Oncologia de Lisboa Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial [IPOLFG]), outra no Centro (Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial [HP, CHUC, EPE] em articulação com o Instituto Português de Oncologia de Coimbra Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial [IPOCFG]) e duas na região Norte (Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial [IPOPFG, EPE] e Centro Hospitalar de São João, Entidade Pública Empresarial [CHSJ, EPE]), que prestam assistência às crianças com idade inferior a 18 anos, que aí são referenciadas por suspeita ou por doença oncológica confirmada. Estas unidades guiam-se pelos *standards* proclamados no documento “Padrões Europeus de cuidados às crianças com cancro” da SIOPE, considerados indispensáveis para intervir em projetos válidos de investigação e garantir a qualidade da assistência.

Estas Unidades de Oncologia Pediátrica dispõem de meios de diagnóstico e de monitorização da doença e do tratamento e disponibilizam os protocolos terapêuticos definido pela SIOPE, de acordo com o “estado da arte” (Pritchard-Jones et al., 2011). Em termos gerais, o protocolo terapêutico, financiado pelo Estado, pode envolver a utilização isolada ou combinada das seguintes modalidades de tratamento: cirurgia, quimioterapia, a radioterapia e a imunoterapia.

A cirurgia é uma modalidade de tratamento local (McLean & Wofford, 2015), apropriada para certos tumores sólidos que apresentam uma massa palpável, na qual se pode realizar uma biópsia excisional ou incisional (McLean & Wofford, 2015). Contudo, o recurso exclusivo a esta modalidade de tratamento raramente acontece, devido à existência de potenciais micrometástases, motivo pelo qual a quimioterapia é indicada em vários casos, podendo ser administrada por via oral, endovenosa, intramuscular ou intratecal (McLean & Wofford, 2015). A quimioterapia pode ser aplicável com intuito curativo primário (p. ex. leucemias), para controlar o tumor primário e potenciais micrometástases antes de iniciar um tratamento local (p. ex. sarcomas, neuroblastomas) ou para eliminar potenciais micrometástases e doença residual após a remoção cirúrgica do tumor primário (p. ex. tumores renais; Lissauer & Clayden, 2012). Alguns protocolos terapêuticos contemplam o transplante de medula óssea, após a quimioterapia e/ou radioterapia, para intensificar o tratamento. O transplante consiste na transfusão de medula óssea saudável e pode ser realizado com recurso a um dador compatível (i.e., alogénico) ou pode ser feito através do próprio doente (i.e., autotransplante) em remissão (Lissauer & Clayden, 2012). Com a exceção da Irradiação corporal total (TBI), a radioterapia é uma modalidade de tratamento local que consiste na utilização de radiação ionizante, capaz de eliminar ou de impedir a divisão das células malignas, ao interferir com a replicação do ácido desoxirribonucleico

(ADN; McLean & Wofford, 2015). A imunoterapia é uma modalidade de tratamento com efeitos sistémicos, sendo administrada por via endovenosa. O tratamento através da imunoterapia visa a estimulação das respostas das células do sistema imunitário, conferindo-lhe maior capacidade para combater o cancro (terapia ativa) ou a introdução de anticorpos que auxiliem o sistema imunitário (terapia passiva; Lissauer & Clayden, 2012).

Além disso, estas Unidades de Oncologia Pediátrica garantem os cuidados de suporte para os efeitos secundários adversos imediatos e sequelas a médio e longo prazo decorrentes do protocolo terapêutico. Dos efeitos secundários adversos imediatos destacam-se a alopecia, a supressão da medula óssea (aplasia), a imunossupressão (neutropenia e um risco acrescido de contrair infeções), as mucosites e as náuseas/vómitos que podem resultar em défices nutricionais. Especificamente, o transplante com recurso a um dador compatível está associado a infeções, hemorragias e/ou outras complicações, como a doença do enxerto-contra-hospedeiro (Lissauer & Clayden, 2012; McLean & Wofford, 2015). Das sequelas a médio e longo prazo são de destacar: atrasos no crescimento, disfunção orgânica e o desenvolvimento de cancro secundário (Lissauer & Clayden, 2012; McLean & Wofford, 2015).

Adicionalmente, nestas Unidades de Oncologia Pediátrica pratica-se uma abordagem multidisciplinar, por forma a garantir o apoio psicossocial à criança com cancro e à família. Neste contexto, o assistente social presta advocacia social, com o objetivo de assegurar que as crianças com cancro e suas famílias usufruem dos direitos previstos na legislação. Especificamente, os assistentes sociais fornecem informação, instruem no preenchimento dos formulários para obtenção dos apoios previstos na lei e fazem a articulação com várias Associações, no sentido de aceder a apoios adicionais para compensar a perda de rendimentos e o aumento das despesas das famílias. A atual legislação Portuguesa prevê um conjunto de políticas sociais de proteção à criança com deficiência ou doença crónica e sua família, que incidem sobretudo nas áreas do trabalho, apoio social e apoio educativo.

Relativamente ao apoio no trabalho, a lei que regula o código do trabalho (Lei n.º7/2009, de 12 de fevereiro) prevê que o trabalhador possa: faltar ao trabalho para prestar assistência ao filho com deficiência ou doença crónica (até 30 dias por ano ou durante todo o período de eventual hospitalização; artigo 49º); usufruir de licença para assistência a filho com deficiência ou doença crónica por período até seis meses, prorrogáveis até quatro anos (artigo 53º); reduzir cinco horas de tempo de trabalho por semana (aplicável a filhos com idade inferior a 1 ano; artigo 54º), trabalhar a tempo parcial (artigo 55º) ou em regime de horário de trabalho flexível para prestar assistência ao filho com deficiência ou doença crónica (artigo 56º; Assembleia da República, 2009).

No que diz respeito ao apoio social, a lei que regula as prestações familiares (Lei n.º 133-B/1997, de 30 de maio) prevê a concessão do subsídio por assistência de terceira pessoa (artigo 10º), quando a criança não possa praticar com autonomia os atos relativos a cuidados de higiene pessoal, locomoção e alimentação, sendo necessária a assistência permanente de

terceira pessoa (artigo 25º). Essa lei prevê, ainda, a concessão do subsídio de bonificação por deficiência (artigo 7º), quando a criança portadora de deficiência de natureza física, orgânica, sensorial, motora ou mental, necessite de atendimento individualizado específico de natureza terapêutica (artigo 21º). Estas prestações mensais destinam-se a compensar o acréscimo de encargos familiares resultantes da situação de dependência e de deficiência (Assembleia da República, 1997). Adicionalmente, a lei (Lei n.º7/2009, de 12 de fevereiro) prevê a concessão do subsídio para assistência a filho com deficiência ou doença crónica (artigo 20º) nas situações em que o progenitor se veja impedido de exercer a sua atividade laboral devido à necessidade de prestar assistência ao filho. Este subsídio é concedido até seis meses, prorrogáveis até quatro anos e corresponde a 65% da remuneração de referência (artigo 23º). A atribuição depende de o outro progenitor ter atividade profissional e não exercer o direito ao respetivo subsídio pelo mesmo motivo ou, em qualquer caso, estar impedido de prestar assistência (Assembleia da República, 2009). Paralelamente, a intervenção de Associações como a Liga Portuguesa Contra o Cancro (LPCC) ou a Acreditar - Associação de Pais e Amigos de Crianças com Cancro tem possibilitado, entre outros aspetos, o financiamento dos medicamentos a famílias mais carenciadas.

No que concerne ao apoio educativo, a lei que regula os apoios especializados a prestar na educação (Lei n.º 3/2008, de 7 de janeiro) estabeleceu a criação de condições para a adequação do processo educativo às necessidades educativas especiais dos alunos com limitações significativas ao nível da atividade física e da participação num ou vários domínios de vida (Assembleia da República, 2008) , pelo que o direito da manutenção da educação da criança encontra-se assegurado, tanto na Unidade de Oncologia Pediátrica por professores e educadores, como em casa.

Relativamente ao apoio psicológico, embora este seja reconhecido como parte integrante do tratamento de crianças com cancro e das suas famílias (Kowalczyk et al., 2014), os apoios disponibilizados nas Unidades de Oncologia Pediátrica são ainda escassos face às necessidades e pouco apoiados em termos legislativos. Neste sentido, há a referir a lei que cria o regime especial de proteção de crianças com doença oncológica (Lei n.º 71/2009, de 6 de agosto) que prevê que as crianças com cancro e os seus pais sejam beneficiárias de apoio psicológico (entre outros) prestados nas Unidades de Oncologia Pediátrica ou em alternativa nos Centros de Saúde e Hospitais da área de residência do agregado familiar (Assembleia da República, 2009); contudo, até à data, esta lei ainda está por regulamentar.

Recentemente, foi lançada uma petição pública “Direitos dos pais de crianças/jovens com cancro”, pela Associação de Pais Heróis com objetivo de alterar a legislação. Entre outros aspetos, os pais de crianças com cancro solicitam a alteração da lei (Lei n.º7/2009, de 12 de fevereiro) que prevê a concessão do subsídio para assistência a filho com deficiência ou doença crónica (artigo 20º), mais especificamente um aumento do período de concessão do subsídio e um acréscimo do montante (Associação de Pais Heróis, 2016, agosto 1). A

confirmar-se a subscrição por mais de 4000 cidadãos, a petição será apreciada em Plenário da Assembleia, o que irá provavelmente obrigar a novas reflexões e, eventualmente, a consequentes reformulações da lei.

4. Fases do cancro pediátrico

O cancro pediátrico pode ser perspectivado como uma doença constituída por diferentes fases às quais estão associados diferentes desafios médicos e psicossociais (Alderfer & Kazak, 2006; Varni, Burwinkle, Katz, Meeske, & Dickinson, 2002). De forma consistente a literatura tem considerado as seguintes fases: a fase de diagnóstico (*diagnosis*), a fase de tratamento (*on-treatment*) e a fase de pós-tratamento (*off-treatment*; cf. Figura 2). Adicionalmente, quando o desfecho da doença é negativo, inclui-se a fase terminal.

Fase de diagnóstico (<i>diagnosis</i>)	Fase de tratamento (<i>on-treatment</i>)	Fase de pós-tratamento (<i>off-treatment</i>)
Período após o diagnóstico de cancro pediátrico, no qual a criança ainda não se encontra a receber protocolo terapêutico (curativo).	Período no qual a criança se encontra a receber protocolo terapêutico (curativo) para doença primária ou para recidiva, que pode incluir o uso isolado ou combinado das seguintes modalidades de tratamento: cirurgia, quimioterapia e radioterapia.	Período durante o qual a criança permanece livre da doença (i.e., sem evidência de cancro), após o término do protocolo terapêutico (curativo) para doença primária ou para recidiva.

Figura 2 | Fases do cancro pediátrico

Um outro aspeto a considerar no cancro pediátrico é a sobrevivência⁴. Para este conceito podem contribuir uma de duas variáveis: a data do diagnóstico ou a data do final do protocolo terapêutico (curativo). Enquanto alguns autores consideram sobreviventes os indivíduos que tiveram um diagnóstico de uma doença de risco de vida (sobrevivente com doença), outros aplicam um critério mais restritivo, utilizando o termo apenas relativamente a crianças que permanecem livres da doença por um determinado período de tempo (sobrevivente sem doença; Durie et al., 2006; Rowland, 2006). Considerando o tempo após o tratamento, Rowland (2006) define como sobrevivente o indivíduo que permanece livre da doença (ou seja, sem evidência de cancro) por um período mínimo de 5 anos, após a conclusão do tratamento⁵.

⁴ Embora este conceito não seja central no presente trabalho, a conceptualização de Rowland foi importante para delimitar os critérios de inclusão para o grupo da fase de pós-tratamento (i.e., ter terminado o protocolo terapêutico (curativo) há menos de 5 anos, um aspeto que será retomado no Capítulo II.

⁵ Por exemplo, o IPOLFG, EPE segue este critério, tendo criado a consulta dos Doentes que Ultrapassaram a Realidade Oncológica com Sucesso (“DUROS”) para acompanhar as crianças que terminaram o protocolo terapêutico (curativo) há mais de cinco anos.

Secção II | Cancro Pediátrico: Um contexto de adaptação

1. A vivência individual e familiar do cancro pediátrico

O diagnóstico de cancro numa criança é um acontecimento inesperado, cujo impacto ultrapassa o nível individual, com desafios e implicações para os pacientes, pais e outros familiares e para as famílias como um todo (Alderfer & Kazak, 2006; Kupst & Bingen, 2006).

A criança com cancro está frequentemente sujeita a dor, entre outros sintomas, seja devido à doença (p. ex. por infiltração óssea, lesão nervosa), aos procedimentos invasivos de diagnóstico, tratamento e vigilância (p. ex. punção lombar, cateterização venosa periférica, mielogramas) ou ao protocolo terapêutico, pelos efeitos secundários adversos imediatos (McLean & Wofford, 2015; Rodgers et al., 2016). Além disso, a complexidade do protocolo terapêutico e a gravidade dos efeitos secundários, acarretam, na maioria das vezes, frequentes deslocações à Unidade de Oncologia Pediátrica e frequentes internamentos de estadia média ou prolongada (Lissauer & Clayden, 2012). Consequentemente, verificam-se disrupções nas rotinas e atividades diárias, tais como atividades escolares e extraescolares (Katz & Madan-Swain, 2006) e restrições no contacto com a família e com os amigos (Hildenbrand, Clawson, Alderfer, & Marsac, 2011). Para além destes aspetos, sobretudo em períodos de neutropenia⁶, durante os quais o risco de infeções é acrescido, a criança é submetida a um conjunto de medidas de prevenção e/ou de controlo de infeções, como uso de máscara de proteção individual, restrições sociais (p. ex. evitar a exposição a locais públicos, restrições nas visitas, contacto com animais) e internamentos em quartos de isolamento na Unidade de Oncologia Pediátrica (Moody, Finlay, Mancuso, & Charlson, 2006), as quais podem intensificar o isolamento social.

Porém, os desafios não terminam com o final do protocolo terapêutico. A fase de pós-tratamento é pautada por novas dinâmicas relacionadas com o regresso às atividades diárias e pelas sequelas físicas (p. ex. problemas cardíacos, amputações) e cognitivas decorrentes do tratamento (p. ex. défices cognitivos; Maeda, 2008; Reimers et al., 2003). Além disso, as longas disrupções no contacto com o grupo de pares podem traduzir-se em dificuldades sociais (Marstrand, Ewing, & Thompson, 2006).

Relativamente aos pais, com a notícia do diagnóstico, estes são confrontados com a necessidade de assimilar um conjunto de informações novas e complexas sobre a doença/tratamento, bem como com exigências acrescidas na prestação dos cuidados à criança. Entre os desafios que ocorrem no contexto hospitalar, destacam-se a participação no processo de tomada de decisão (Kupst, Patenaude, Walco, & Sterling, 2003) e a aquisição/desenvolvimento de competências para ajudar a criança a lidar com as questões

⁶ Diminuição anormal do número de neutrófilos (Meckler & Lindemulder, 2009).

mais perturbadoras do tratamento, como os procedimentos terapêuticos (F. W. Harper et al., 2012). Acresce que quando a criança não se encontra no hospital, os pais ficam responsáveis pela prossecução do tratamento (p. ex. assegurar que a criança faz a medicação na dosagem e tempo previsto, administrar injeções; Young, Dixon-Woods, Findlay, & Heney, 2002) e por monitorizar o estado de saúde da criança (Young et al., 2002). Adicionalmente, aos pais é pedido que implementem um conjunto de medidas de prevenção e/ou de controlo de infeções relacionadas com a higiene da criança (p. ex. banho diário, manter as unhas curtas), a higiene do domicílio (p. ex. mudar a roupa da cama diariamente; substituir semanalmente esponjas e esfregões e desinfetá-los com lixívia diariamente), a higiene dos alimentos (p. ex. não provar os alimentos com os utensílios utilizados previamente para mexer os alimentos; lavar o exterior das latas antes de abrir) e em assegurar que a criança cumpre com as restrições relativas à exposição a locais públicos, exposição solar, exposição a animais, entre outras (Moody et al., 2006; Rodgers et al., 2016).

Porém, os estudos indicam que os desafios com que os pais são confrontados não se restringem à fase de tratamento. Durante as fases de tratamento e de pós-tratamento os pais têm de lidar com a incerteza (Klassen et al., 2007; Rodriguez, Dunn, Zuckerman, Gerhardt, & Compas, 2012) relacionada com a imprevisibilidade do sucesso de tratamento (p. ex. o meu filho/a minha filha vai sobreviver?), com a possibilidade da ocorrência de uma recidiva (p. ex. o cancro vai voltar?) ou com a possibilidade da ocorrência de sequelas a longo prazo (p. ex. o meu filho/a minha filha vai poder ter filhos?; Patterson, Holm, & Gurney, 2004, p. 404). Além disso, especificamente na fase de pós-tratamento, os pais continuam a ter de monitorizar o estado de saúde da criança (sobretudo os primeiros sinais de recidiva), lidar com as sequelas do tratamento e apoiar a criança no regresso às suas rotinas. Estes desafios ocorrem num período em que, geralmente, há uma redução dos contactos com o hospital, pelo que os pais podem percecionar uma diminuição do apoio por parte dos profissionais de saúde e uma maior responsabilização, anteriormente partilhada (Wakefield, McLoone, Butow, Lenthen, & Cohn, 2011).

Este acréscimo abrupto de tarefas, para além das habituais tarefas inerentes à parentalidade, exige uma reorganização de papéis e responsabilidades familiares para atender às necessidades da criança com cancro (Gerhardt et al., 2016). Esta reorganização foi já descrita na literatura como “living as a split family” (Long & Marsland, 2011, p. 70): um dos pais (habitualmente a mãe) reduz o tempo de trabalho ou deixa de trabalhar (Fletcher, 2010) para desempenhar a “unexpected career of caregiver” (Raina et al., 2004, p. 143), enquanto o outro pai mantém o emprego, presta cuidados ao(s) outro(s) filho(s) e gere a casa (Clarke, McCarthy, Downie, Ashley, & Anderson, 2009; Long & Marsland, 2011). Estas alterações podem contribuir para disrupções nas rotinas familiares (p. ex. restrição das atividades familiares e ruturas nos contactos entre os elementos da família; Long & Marsland, 2011) e influenciar negativamente a situação financeira da família, uma vez que as despesas

médicas e não médicas aumentam. Alguns exemplos dessas despesas são as deslocações frequentes ao hospital, aquisição de alimentos embalados em doses individuais, medicamentos, máscaras de proteção individual (Patterson et al., 2004; Warner, Kirchhoff, Nam, & Fluchel, 2015). A investigação tem mostrado que as consequências a nível financeiro são percecionadas como negativas, mesmo em famílias com um nível socioeconómico mais elevado (Bona et al., 2014) e em países com um sistema de saúde com cobertura universal, em que o tratamento é compartilhado pelo Estado (Eiser & Upton, 2007). Salienta-se que as despesas não se confinam à fase de tratamento, prolongando-se também à fase de pós-tratamento (Warner et al., 2015).

Em conclusão, o corpo de estudos empíricos nesta área indica que a vivência do cancro pediátrico está entre as experiências de vida mais desafiantes para as famílias, afetando não só a criança, mas cada elemento da família e o funcionamento deste sistema (Alderfer & Kazak, 2006; Kazak et al., 2004).

2. A adaptação

2.1. Conceito chave nas condições crónicas de saúde

O glossário de Schwab e Gelfman (2005, p. 609) define as condições crónicas de saúde como “one that is long term (usually more than three months duration) and is either not curable or has residual features that result in limitations in daily living requiring adaptation in function or special assistance”. Partindo desta definição, o termo adaptação emerge como um conceito chave para a compreensão das condições crónicas de saúde, porém, difícil de definir, uma vez que se reveste de múltiplos significados na literatura o que dificulta a sua operacionalização.

De seguida será feita uma descrição dos dois modelos utilizados na conceptualização da adaptação às condições crónicas de saúde em idade pediátrica, atribuindo-se especial destaque às lentes que sustentaram o presente trabalho.

2.2. A adaptação no contexto do cancro pediátrico: Síntese crítica da literatura

A concetualização do cancro pediátrico como uma condição crónica de saúde é recente. Durante grande parte do século XX, na ausência de tratamentos eficazes, as crianças não sobreviviam (Kazak, 2001). Com efeito, as primeiras investigações na área do cancro pediátrico, que surgiram na década de 50 e 60 do século passado, não se preocupavam com a adaptação à doença de evolução invariavelmente fatal, mas em dar resposta à seguinte questão: As crianças sabiam que estavam a morrer? (Spinetta & Maserà, 2006, p. 561). Ao estudar se as crianças tinham ou não consciência da gravidade da doença, que levaria à

morte, estas investigações, avaliavam um indicador central da ansiedade (Spinetta & Masera, 2006).

Com os avanços quer ao nível do diagnóstico, quer do tratamento, sobretudo a partir dos anos 70, o cancro pediátrico deixa de ser conceptualizado como uma doença de evolução invariavelmente fatal (Kaatsch, 2010; Lissauer & Clayden, 2012; Ward et al., 2014) para se transformar, cada vez mais, numa condição crónica de saúde. A acompanhar esta mudança na conceção do cancro pediátrico verificou-se um aumento de estudos de cariz psicossocial (Kazak, 2001) sobre tópicos como o ajustamento e a adaptação da criança e da família ao *stress* despoletado pela condição crónica de saúde (Kupst, 1994; R. J. Thompson, Jr. & Gustafson, 1996). Desde então, à semelhança do que acontece na investigação sobre o impacto de outras condições crónicas de saúde, os estudos do impacto do cancro pediátrico têm sido influenciados, essencialmente, por dois grandes modelos, o modelo orientado para a patologia e o modelo baseado na normatividade (Bradford, 1997; Kupst, 1994).

2.2.1. Modelo orientado para a patologia vs. Modelo baseado na normatividade

De acordo com o modelo orientado para a patologia (*“pathological” model/pathology-oriented model*; Bradford, 1997; Kupst, 1994), altamente valorizado até aos anos 80 (Barakat, Kunin-Batson, & Kazak, 2003), a condição crónica de saúde teria efeitos adversos inevitáveis, indutores de psicopatologia e de desajustamento (Bradford, 1997). Com base nesta assunção, os estudos decorrentes deste modelo, essencialmente descritivos, procuravam avaliar a frequência de problemas emocionais como a ansiedade e a depressão, bem como o disfuncionamento familiar, usando medidas clínicas comuns (p. ex. testes para avaliar a personalidade, entrevistas de avaliação do estado mental). Os resultados obtidos eram comparados com os resultados das amostras não clínicas e com os valores normativos (Kupst, 1994). Entre as críticas dirigidas a estes estudos, focados nas dificuldades, nos défices, nos desvios do “normal”, destacam-se as dirigidas à metodologia utilizada para determinar o desajustamento (p. ex. para comparar crianças com condições crónicas de saúde vs. crianças saudáveis utilizavam-se medidas cujos scores estariam inflacionados pelos efeitos físicos decorrentes da doença/tratamento) e as dirigidas aos pressupostos teóricos subjacentes, segundo os quais os efeitos adversos na criança e no funcionamento familiar não seriam inevitáveis (Bradford, 1997). Assim, por exemplo, Barbarin, Hughes e Chesler (1985) verificaram que a vivência do cancro pediátrico estava associada a um aumento da coesão familiar. Também, Markson e Fiese (2000) concluíram que “a chronic illness alone may not place children at risk but that a disease in the context of family life stress is associated with poor child outcome” (p. 473). Estes dados obrigaram a uma necessidade de reconceptualizar a forma como o ajustamento era entendido, e conseqüentemente, a uma mudança no foco para a compreensão dos fatores que influenciam o processo de adaptação (Bradford, 1997).

De acordo com o segundo modelo, a que Kupst (1994) chamou de modelo baseado na normatividade (*normative-based model*), o cancro pediátrico é visto como um acontecimento

não normativo, indutor de *stress*, mas ao qual podem estar associados diferentes resultados (Kupst, 1994). Os estudos decorrentes deste modelo, fundamentalmente de natureza explicativa, afastam-se da perspetiva simplista do desajustamento inevitável, invariável e estático (cf. testes de personalidade) que marcou o modelo anterior, para dar resposta à seguinte questão: “why some children and their families cope successfully with the challenges they face in adjusting to a chronic disease, whilst others with the same condition fare less well?” (Bradford, 1997, p. 21). Em termos metodológicos, estes estudos puderam abdicar das amostras não clínicas e passaram a desenvolver e a incluir medidas mais sensíveis aos problemas e desafios gerados pela condição crónica de saúde. Com efeito, os estudos influenciados por este modelo centraram-se em analisar e compreender os múltiplos fatores que podem interferir no processo de adaptação, e que explicaram a variabilidade das respostas perante uma situação idêntica e a diversidade de trajetórias individuais (Bradford, 1997; D. C. Harper, 1991).

2.2.1.1. Adaptação vs. Ajustamento

Embora os termos “adaptação” e “ajustamento” tenham, por vezes, sido utilizados como sinónimos, D. C. Harper (1991) considerou que o termo ajustamento seria preferível para os estudos decorrentes do modelo orientado para a patologia e o termo adaptação para o modelo baseado na normatividade. Uma vez que o termo adaptação – “striving toward acceptable compromise with the environment” (White, 1974, p. 52) – é mais dinâmico do que o termo ajustamento – “a person's accommodation to or compliance with environmental demands (...) such as having a serious illness” (Kupst, 1994, p. 37) – e pressupõe que a pessoa possa agir sobre o ambiente. Adicionalmente, o termo adaptação é considerado um conceito hierarquicamente mais abrangente (L. B. Murphy, 1974), pois considera vários domínios e é aplicável a vários *outcomes*, enquanto o termo ajustamento (psicológico) é mais específico (R. J. Thompson, Jr. et al., 1994).

Em conclusão, é nesta perspetiva multivariada e interacional, assente no modelo baseado na normatividade, que se afasta do conceito estático do desajustamento para começar a investigar a adaptação à condição crónica de saúde como um processo que flutua de forma considerável ao longo do tempo (D. C. Harper, 1991) que assenta o presente trabalho. Esta perspetiva mais recente teve implicações a dois níveis. A montante, por considerar vários fatores de influência para o processo de adaptação (que incluem não apenas fatores clínicos, mas também fatores psicossociais) e a jusante por privilegiar medidas multidimensionais e sensíveis aos desafios decorrentes da condição crónica de saúde.

2.3. Principais indicadores de adaptação individual

Neste ponto, iremos proceder à apresentação dos principais resultados descritos na literatura referentes à adaptação individual no contexto do cancro pediátrico⁷. Esta revisão incide nos indicadores que foram objeto de estudo da presente investigação, ancorados sobretudo às fases de tratamento e de pós-tratamento, que definimos para o contexto deste trabalho.

2.3.1. Adaptação dos pais

2.3.1.1. Sintomatologia psicopatológica

Diversos estudos têm utilizado como indicador de adaptação individual a presença de sintomatologia psicopatológica (i.e., sintomatologia ansiosa e depressiva).

No que diz respeito à ansiedade, que se refere à “antecipação apreensiva de um perigo ou desgraça, acompanhada de uma sensação de disforia ou sintomas somáticos de tensão” (APA., 2010, p. 820) ou, por outras palavras, “a complex combination of emotions that include fear, apprehension, and worry” (Vrijmoet-Wiersma et al., 2008, p. 697), da revisão da literatura sobre o ajustamento psicológico, Vrijmoet-Wiersma et al. (2008) verificaram que os pais de crianças com cancro apresentavam níveis acrescidos de sintomatologia ansiosa nas fases de diagnóstico, de tratamento e de pós-tratamento, quando comparados com pais de crianças saudáveis. Quanto à sintomatologia depressiva que “include, but are not limited to, a persistent sad, anxious or empty mood, feelings of hopelessness or pessimism, feelings of guilt or helplessness, decreased energy, difficulty concentrating or making decisions, restlessness, and insomnia or oversleeping” (p. 697), Vrijmoet-Wiersma et al. (2008) consideraram que, em comparação com pais de crianças saudáveis, os pais de crianças com cancro também apresentavam níveis mais elevados de sintomatologia depressiva em vários momentos desde o diagnóstico. Estes resultados são semelhantes aos encontrados numa amostra Portuguesa, no qual as mães apresentavam níveis de ansiedade acrescida, comparativamente aos valores normativos, e valores indicativos de depressão leve (Araújo, 2011).

Resultados semelhantes foram também encontrados numa importante meta-análise, conduzida por Pai et al. (2007) sobre o sofrimento emocional⁸, que incidiu sobre a análise de 29 estudos conduzidos nas fases de diagnóstico, de tratamento e/ou de pós-tratamento. A partir deste trabalho, os autores concluíram que, quer as mães quer os pais de crianças com

⁷ Embora focado no contexto do cancro pediátrico, sempre que se revele pertinente ilustrar algum aspeto idiossincrático e/ou na ausência de estudos com famílias de crianças com cancro serão brevemente introduzidas referências a estudos no âmbito de condições crónicas de saúde.

⁸ Sofrimento emocional “was defined as up-setting or aversive feelings or affect experienced by an individual. This includes symptoms of anxiety or depression, which may or may not meet criteria for a mental disorder” (Pai et al., 2007, p. 408).

cancro, apresentavam níveis superiores de sofrimento emocional comparativamente aos grupos de controlo (i.e., pais de crianças fisicamente saudáveis ou amostras normativas).

Considerando a sintomatologia psicopatológica clinicamente significativa, Dahlquist et al. (1993) verificaram que durante a fase de tratamento 13% das mães e 12% dos pais apresentavam ansiedade acima do ponto de corte, sendo este valor de 13% e de 8% na depressão, respetivamente. De forma similar, Hardy et al. (2008) verificaram que na fase de pós-tratamento 11% dos pais apresentavam ansiedade acima do ponto corte, sendo estes valores de 7% para a depressão. Estes dados sugerem que, ao longo do tempo, uma minoria de pais de crianças com cancro apresenta dificuldades de adaptação (Price, Kassam-Adams, Alderfer, Christofferson, & Kazak, 2016) merecedoras de atenção clínica, sendo estes resultados mais notórios para as mães.

2.3.1.2. *Qualidade de vida (QdV)*

Nos últimos anos tem aumentado o número de estudos sobre cancro pediátrico que utilizam medidas que avaliam dimensões do funcionamento positivo dos indivíduos como indicadores de adaptação individual. Esta mudança conduziu ao abandono de uma abordagem exclusivamente focada no papel negativo da doença, passando igualmente a integrar medidas mais positivas do seu funcionamento. Um desses indicadores é a QdV que permite uma avaliação subjetiva e multidimensional do bem-estar dos indivíduos (Vaz-Serra, 2010). Na perspetiva da Organização Mundial de Saúde (OMS), a QdV 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 (WHOQOL Group, 1994, p. 28)

Os resultados dos estudos comparativos que se focam na QdV têm sido consistentes. De um modo geral, os pais de crianças com cancro têm apresentado valores inferiores de QdV, quando comparados com pais de crianças saudáveis (Witt et al., 2010) e com adultos saudáveis (Chien et al., 2003) nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Resultados semelhantes foram encontrados por outros estudos direcionados apenas para a fase de tratamento (Eiser, Eiser, & Stride, 2005; Klassen et al., 2008). De acordo com estes autores, os pais de crianças com cancro, quando comparados com a população geral, apresentaram menor QdV.

2.3.2. *Adaptação das crianças*

A literatura tem sido unânime em afirmar que a presença de uma condição crónica de saúde como o cancro, em idade pediátrica, pode envolver experiências potencialmente

traumáticas nas fases de tratamento e de pós-tratamento (Price et al., 2016; Werba & Kazak, 2009). Destas destacam-se os procedimentos invasivos, os efeitos secundários decorrentes do protocolo terapêutico (McLean & Wofford, 2015; Rodgers et al., 2016), as idas às urgências, os internamentos nos cuidados intensivos, o testemunho do falecimento de outras crianças, o risco de recidivas e o risco de sequelas a longo prazo (Kazak et al., 2004).

2.3.2.1. *Ansiedade*

Enquanto alguns estudos encontraram níveis mais elevados de ansiedade em crianças com cancro na fase de tratamento (C., J., L., & S., 2008) e de pós-tratamento (Elkin, Phipps, Mulhern, & Fairclough, 1997), por comparação a crianças saudáveis, outros encontraram um padrão inverso. Por exemplo, Phipps e Srivastava (1997) verificaram que crianças com cancro nas fases de tratamento e de pós-tratamento apresentavam níveis mais baixo de depressão e de ansiedade, por comparação a crianças saudáveis. Contudo, a maioria dos estudos não encontraram diferenças significativas entre crianças com cancro e crianças saudáveis nas fases de tratamento (von Essen, Enskar, Kreuger, Larsson, & Sjoden, 2000) e de pós-tratamento (Pendley, Dahlquist, & Dreyer, 1997; T. Sloper, Larcombe, & Charlton, 1994). De facto, numa revisão sistemática que incluiu 20 estudos que se focaram na fase de pós-tratamento, Eiser, Hill e Vance (2000) concluíram que a maioria das investigações demonstraram que as crianças com cancro não apresentavam diferenças nas medidas que avaliaram a ansiedade, a depressão ou a autoestima, por comparação à população geral ou a crianças saudáveis. Resultados semelhantes foram encontrados numa recente meta-análise conduzida por Wechsler e Sanchez-Iglesias (2013), que incidiu sobre a análise de 10 estudos, sobre o ajustamento psicológico⁹ de crianças com cancro na fase de tratamento, em comparação com crianças saudáveis. A partir deste trabalho, os autores concluíram que, não havia evidência de que as crianças com cancro diferiam das saudáveis, sugerindo que o ajustamento psicológico de uma criança com cancro na fase de tratamento é semelhante ao de uma criança que não está a ser confrontada com esta experiência (Wechsler & Sanchez-Iglesias, 2013).

2.3.2.2. *Qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS)*

A QdVrS emerge como um indicador a considerar no campo na oncologia pediátrica (Levi, 2006). Em termos gerais, a QdVrS refere-se à perceção subjetiva do paciente sobre o impacto da doença e do tratamento na QdV dos indivíduos (para uma revisão, consultar Aaronson et al., 1991). Para Davis et al. (2006) a QdV é geralmente conceptualizada como um indicador abrangente para avaliar o bem-estar ao longo de vários domínios, sendo a QdVrS considerado um subdomínio deste constructo mais geral. Também Levi (2006) faz a distinção

⁹ Os estudos incluídos nesta meta-análise utilizaram medidas de auto-relato para avaliar: a ansiedade (incluindo ansiedade estado e traço), a depressão, o *stress* pós-traumático (incluindo reações de *stress* pós-traumático e sintomas de *stress* pós-traumático), as estratégias de *coping* e a QdV (saúde mental).

entre a QdV e a QdVrS, afirmando que a QdVrS enfatiza o impacto da saúde sobre um conceito mais amplo de QdV.

Ainda que fosse expectável que a QdVrS de crianças com cancro pudesse estar comprometida pela doença, pelo tratamento e pelos efeitos secundários ou sequelas decorrentes deste, pela falta de oportunidade para participar em atividades habituais e pela preocupação associada à doença e ao tratamento (Eiser, 2004), a evidência empírica existente acerca da QdVrS tem sido inconsistente. Por um lado, alguns estudos comparativos verificaram a existência de diferenças na QdVrS, com as crianças com cancro a reportar pior QdVrS na fase de tratamento (Russell, Hudson, Long, & Phipps, 2006) e de pós-tratamento (Russell et al., 2006; Upton et al., 2005), comparativamente às crianças saudáveis. No mesmo sentido, Eiser et al. (1997) verificaram que as crianças com cancro, na fase de pós-tratamento, apresentaram pior QdV em comparação com a população geral. Porém os resultados de outros estudos não evidenciaram diferenças quer na fase de tratamento, quer na fase de pós-tratamento (p. ex. Kazak et al., 2010).

De forma similar, os dados comparativos com crianças com outras condições crónicas de saúde também têm sido marcadamente inconsistentes. Por um lado, Engelen et al. (2011) não encontraram diferenças ao nível da QdVrS entre crianças diagnosticadas com cancro, na fase de pós-tratamento, quando comparadas com os valores normativos para crianças com outras condições crónicas de saúde. Por oposição, Felder-Puig et al. (2004) verificaram a existência de diferenças, com as crianças com cancro a apresentar níveis mais elevados de QdVrS, na fase de pós-tratamento, comparativamente a crianças com outra condição crónica de saúde.

2.4. Adaptação familiar

O cancro pediátrico ultrapassa claramente o nível individual. Indubitavelmente, o cancro pediátrico afeta não apenas os membros da família, mas também as relações interpessoais entre os elementos da família e o funcionamento familiar como um todo (Alderfer & Kazak, 2006). Se, por um lado, é expectável que o cancro pediátrico afete o sistema familiar e, nesse sentido, o funcionamento familiar tem sido conceptualizado como um *adjustment outcome* (Brown, 2002), por outro, o funcionamento familiar também tem sido descrito como um importante fator de influência para a adaptação (Brown, 2002). O funcionamento familiar pode funcionar como um fator de recurso ou protetor¹⁰, ou atuar na direção oposta, como um fator de risco ou de vulnerabilidade¹¹. Em suma, assim como a

¹⁰ Um fator de recurso tem um impacto positivo independentemente da presença ou da ausência de um *stressor*, enquanto o fator protetor apenas tem impacto positivo em condições de elevada adversidade (Holmbeck, Zebracki, & Mcgoron, 2009).

¹¹ Um fator de risco tem um impacto negativo independentemente da presença ou da ausência de um *stressor*, enquanto um fator de vulnerabilidade aumenta a probabilidade de um resultado não adaptativo em contexto de adversidade (Holmbeck et al., 2009).

doença/tratamento pode ter impacto no funcionamento familiar (Field & Duchoslav, 2009), o funcionamento familiar pode ter um impacto significativo sobre a adaptação durante o curso da doença/tratamento. Esta dupla concetualização do nível familiar, como integrando resultados de adaptação e fatores de influência para a adaptação confere a este nível sistémico um carácter de especial complexidade. Assim, optámos por sistematizar a informação relativa à primeira aceção (resultados de adaptação, por comparação a grupos de controlo) neste ponto e relativamente à segunda (fator de influência) no ponto seguinte (cf. Ponto 3.3).

2.4.1. Família como sistema

Relativamente à relação de casal, os estudos comparativos não encontraram diferenças na qualidade da relação conjugal entre pais de crianças com cancro, por comparação a pais de crianças saudáveis (p. ex. Larson, Wittrock, & Sandgren, 1994). No mesmo sentido, numa meta-análise sobre o tópico, Pai et al., (2007) concluíram que não existiam diferenças significativas na qualidade da relação conjugal entre pais de crianças com cancro e pais de crianças saudáveis.

2.4.1.1. Rituais familiares

A presença de uma condição crónica de saúde pode influenciar a vivência dos rituais familiares. Os rituais familiares podem ser definidos como eventos especiais, como a hora de jantar, as férias, os natais e os fins de semana, com um significado partilhado pela família (Fiese & Kline, 1993; Fiese et al., 2002) ou “atos simbólicos codesenvolvidos pela família; estão imbuídos de significados construídos e percebidos pelos seus membros, promovendo a coesão, comunicação, reflexão e memórias partilhadas” (Crespo, 2011, p. 81). A literatura tem sugerido que quando as famílias estão numa situação de *stress*, como o início de uma condição crónica de saúde, os rituais familiares podem ser interrompidos (Imber-Black, 2014; Reiss, 1982; Steinglass, 1998). Embora o impacto da condição crónica de saúde nos rituais familiares tenha sido teoricamente discutido, poucos são os estudos que têm examinado empiricamente esta questão. Conhecemos apenas dois estudos comparativos relativamente aos rituais familiares no contexto de uma condição crónica de saúde. Rodger e Umaibalan (2011) verificaram que as mães de crianças com autismo organizavam menos rituais familiares no contexto de férias, mas não na hora de jantar, celebrações especiais, fins de semanas, feriados religiosos e tradições culturais, quando comparados com famílias de crianças com um desenvolvimento normativo. Este padrão é consistente com os resultados do estudo de Markson e Fiese (2000) que evidenciou que as famílias de crianças com asma (diagnosticadas, em média, há três anos e sete meses) não se distinguiram das famílias de crianças saudáveis no que diz respeito aos rituais familiares. Porém estes resultados devem ser interpretados

com algumas reservas uma vez que a ausência de diferenças não significa que estas não tenham ocorrido numa fase inicial do curso da doença (Crespo et al., 2013). Relativamente ao cancro pediátrico especificamente, não conhecemos estudos sobre a vivência dos rituais familiares.

2.4.1.2. Coesão familiar

Para além dos rituais familiares, a coesão familiar, definida como grau de envolvimento, de ajuda e apoio que os diferentes elementos da família prestam uns aos outros (Moos & Moos, 1986) ou vínculo emocional entre os membros da família (Olson, 2000) é um dos fatores que mais se tem destacado. A coesão familiar afigura-se como um importante indicador de adaptação familiar ao cancro pediátrico, na medida em que possibilita o apoio mútuo, a partilha de emoções, afeto entre os membros (Ozono et al., 2010). Especificamente, algumas investigações comparativas demonstraram que crianças com cancro (Rait, Ostroff, Smith, & Cella, 1992) e seus pais (Morris et al., 1997; Rosenberg et al., 2014) tendem a reportar níveis mais baixos de coesão familiar na fase de tratamento e pós-tratamento, por comparação à população geral. Porém, vários outros estudos têm mostrado que a coesão familiar não parece afetada na perspetiva das crianças (Kazak, Christakis, Alderfer, & Coiro, 1994; Kazak & Meadows, 1989) e dos pais (Beek, Schappin, Gooskens, Huisman, & Jongmans, 2015; Kazak et al., 1994; Kazak & Meadows, 1989; Manne et al., 1995; M. Sawyer, Antoniou, Toogood, & Rice, 1999). Num terceiro grupo de estudos comparativos os resultados indicam que a coesão familiar parece mesmo ser influenciada positivamente, tanto na perspetiva das crianças (Beek et al., 2015; Cornman, 1993; Trask et al., 2003) como dos pais (Cornman, 1993; Varni, Katz, Colegrove, & Dolgin, 1996), quer na fase de tratamento, quer na fase de pós-tratamento. Este padrão parece congruente com os resultados de alguns estudos qualitativos. Por exemplo, Clarke-Steffen (1997) demonstrou que todas as famílias relatavam níveis mais elevados de coesão familiar após o diagnóstico: “all families felt that the illness experience drew family members closer together and motivate them to work together for the common good” (p. 284).

Em suma, não obstante o seu contributo, a inconsistência dos resultados verificada nestes estudos descritivos quer na adaptação individual, quer na adaptação familiar, reforça a necessidade de uma abordagem mais abrangente que consiga examinar os fatores que influenciam a variabilidade de respostas perante o mesmo acontecimento indutor de *stress*.

3. Fatores de influência para a adaptação individual e familiar

Os autores são unânimes relativamente ao facto de as famílias com uma criança com cancro serem confrontadas com desafios acrescidos e idiossincráticos. Menos claros são os resultados dos estudos comparativos que não fornecem atualmente uma conclusão consensual relativamente à adaptação de crianças, pais e famílias. Estas inconsistências podem dever-se à metodologia utilizada para avaliar a adaptação, porém estes resultados podem também indicar que a ausência ou a presença da doença poderá não ser o único determinante para a adaptação. De acordo com o modelo baseado na normatividade (Kupst, 1994), o processo de adaptação pode ser influenciado, de forma positiva ou negativa, por diversos fatores e contextos nos quais as crianças com cancro e seus pais estão inseridos. Nesse sentido, seguidamente iremos descrever os fatores que podem interferir no processo de adaptação.

3.1. Fatores clínicos

Tendo em conta que o protocolo terapêutico para o cancro pediátrico varia consideravelmente no que diz respeito à duração, à(s) modalidade(s) de tratamento envolvidas e aos efeitos secundários associados, alguns estudos têm considerado a influência destes fatores clínicos.

3.1.1. Intensidade do tratamento

Inclui-se nestes fatores, a intensidade do tratamento que pode ser definida como: “an over-arching evaluation that takes into account professionals’ perceptions of the duration of therapy, side effects profile, risk of complications, number of agents, and treatment modalities, predicted time in the hospital, and the extent to which treatments are outpatient” (Werba et al., 2007, p. 674). Por outras palavras, a intensidade do tratamento permite uma avaliação objetiva e multidimensional do impacto do protocolo terapêutico do cancro pediátrico.

A literatura tem indicado que protocolos terapêuticos mais intensivos têm estado associados a mais frequentes e complexos efeitos secundários e possíveis complicações (p. ex. risco de infeção; Mor et al., 2011; Rodgers et al., 2016), e conseqüentemente maior necessidade de cuidados de suporte quer na Unidade de Oncologia Pediátrica (p. ex. transfusões, internamentos), quer em casa (p. ex. usar máscara de proteção individual, seguir dieta neutropénica, evitar contacto com pessoas doentes, animais, exposição solar, atividades ao ar livre; Moody et al., 2006).

Assim, seria de esperar que protocolos de tratamento mais intensivos estivessem associados de forma negativa a resultados da adaptação individual, contudo esta relação nem

sempre se verificou. Se, por um lado alguns estudos demonstraram que crianças submetidas a protocolos de tratamento mais intensivos e seus pais apresentaram níveis mais baixos de QdVrS nas fases de tratamento (Klassen et al., 2008; Landolt, Vollrath, Niggli, Gnehm, & Sennhauser, 2006) e de pós-tratamento (Speechley, Barrera, Shaw, Morrison, & Maunsell, 2006), outros não encontraram qualquer efeito da intensidade do tratamento na QdVrS nas fases de tratamento (Barakat, Marmer, & Schwartz, 2010) e de pós-tratamento (Kazak et al., 2010).

Em termos familiares, de acordo com a revisão elaborada por Crespo et al. (2013) sobre as rotinas e os rituais familiares em famílias com condições crónicas de saúde, parece expectável que um protocolo terapêutico mais exigente do ponto de vista do número de internamentos e da necessidade de cuidados de suporte, possa causar alterações em termos de funcionamento familiar (p. ex. disrupções na vivência dos rituais familiares), porém não é do nosso conhecimento a existência de estudos que tenham considerado os rituais familiares.

3.1.2. Tempo desde o diagnóstico

O tempo desde o diagnóstico também tem sido considerado nos estudos sobre a adaptação no cancro pediátrico. No que se refere à adaptação individual, a maioria dos estudos verificou uma melhoria na QdV das crianças (M. Sawyer et al., 1999) e dos pais (Klassen et al., 2008) à medida que aumentava o tempo decorrido desde o diagnóstico. Estes resultados aproximam-se dos resultados dos estudos longitudinais. Por exemplo, na meta-análise de Pai et al. (2007), os autores verificaram que o sofrimento emocional dos pais diminui desde o momento do diagnóstico até um ano após o diagnóstico. Também, Kupst e colaboradores avaliaram 64 famílias de crianças com cancro ao longo de dez anos, em quatro momentos de avaliação (diagnóstico, um ano após o diagnóstico, seis anos após o diagnóstico e dez anos após o final dos tratamentos). Os resultados deste estudo evidenciaram uma diminuição no sofrimento emocional dos pais ao longo do tempo (Kupst et al., 1995; Kupst & Schulman, 1988; Kupst et al., 1982).

Em termos familiares, a maioria dos estudos não tem encontrado qualquer associação entre o tempo desde o diagnóstico e a coesão familiar. Por exemplo, M. Sawyer et al. (1999) verificaram que a coesão familiar não estava relacionada com o tempo desde o diagnóstico, tanto na perspectiva das crianças como dos pais. De forma semelhante, os estudos longitudinais não encontraram mudanças no funcionamento familiar (M. Sawyer, Antoniou, Toogood, & Rice, 1997; M. Sawyer, Antoniou, Toogood, Rice, & Baghurst, 2000; M. G. Sawyer, Streiner, Antoniou, Toogood, & Rice, 1998). Outro exemplo é o estudo de Barrera, Atenafu e Pinto (2009), no qual os autores não encontraram diferenças na coesão familiar ao longo do tempo (antes do transplante, um ano após o transplante e dois anos após o transplante).

3.2. Fatores individuais

3.2.1. Sexo

Relativamente à adaptação individual, os resultados dos estudos evidenciaram que as mães apresentaram níveis mais elevados de sintomatologia ansiosa e depressiva comparativamente aos pais. Estas diferenças entre mães e pais têm sido confirmadas pelas revisões sistemáticas até agora publicadas. Sultan, Leclair, Rondeau, Burns e Abate (2016) verificaram que as mães apresentavam níveis mais elevados de sofrimento emocional que os pais nas fases de diagnóstico e de tratamento. Também Vrijmoet-Wiersma et al. (2008) e Clarke et al. (2009) concluíram que as mães apresentavam níveis mais acentuados de sintomatologia ansiosa e depressiva nas fases de diagnóstico, de tratamento e de pós-tratamento.

Porém estes dados não clarificam se estas diferenças resultam de um maior impacto da doença nas mães ou se resultam de diferenças de sexo na expressão da reatividade emocional. Por exemplo, Larson et al. (1994) verificaram que, apesar de as mães apresentarem níveis mais elevados de sintomatologia psicopatológica, esta diferença existia também na população geral, mostrando, por isso, que não se devia à experiência da doença e do tratamento do cancro pediátrico. Não obstante, é reconhecido que são geralmente as mães que desempenham o papel de cuidador (Raina et al., 2004) e, por isso, acumulam mais tarefas ou abdicam das suas carreiras profissionais (Fletcher, 2010). Além disso, o cuidador fica mais exposto a experiências adversas e potencialmente traumáticas (p. ex. dor, morte de outras crianças; Kazak et al., 2001). No que concerne à QdV, apesar de escassos, os resultados dos estudos não encontraram diferenças em função do sexo dos pais (p. ex. Goldbeck, 2001), tal como acontece na população geral (Pereira, Melo, Gameiro, & Canavarro, 2011). De modo semelhante, na revisão da literatura efetuada por Klassen, Anthony, Khan, Sung e Klaassen (2011), 15 dos 27 estudos analisados indicaram a ausência de diferenças na QdVrS das crianças com cancro entre raparigas e rapazes.

Em termos familiares, na meta-análise levada a cabo por Pai et al. (2007) não foram encontradas diferenças entre mães e pais no que respeita ao funcionamento familiar, que entre vários componentes incluía a coesão familiar.

3.2.2. Esperança

A esperança, definida como “the perceived ability to produce pathways to achieve desired goals and to motivate oneself to use those pathways” (Rand & Cheavens, 2009, p. 323) ou “a cognitive set that is based on a reciprocally derived sense of successful agency (goal-directed determination) and pathways (planning to meet goals)” (Snyder, Harris, et al., 1991, p. 571) pode ser um fator relevante no contexto da adaptação individual ao cancro pediátrico. Indivíduos com níveis mais elevados de esperança podem envolver-se em

estratégias de *coping* mais adaptativas para lidar com o *stressor* e com os obstáculos à concretização do objetivo. Por exemplo, num estudo com crianças com uma condição crónica de saúde, Berg, Rapoff, Snyder e Belmont (2007) verificaram que níveis mais elevados de esperança estavam associados positivamente à adesão ao tratamento. Também, Carver et al. (1993) ao avaliar 59 mulheres diagnosticadas com cancro em cinco momentos ao longo de um ano, verificaram que o otimismo estava associado negativamente ao sofrimento emocional em todos os momentos de avaliação. Além disso, estes autores verificaram que estratégias de *coping* mais adaptativas mediavam a relação entre o otimismo e o sofrimento emocional.

Especificamente em relação ao cancro pediátrico conhecemos apenas três estudos que investigaram a relação entre esperança e a adaptação individual, sendo que um deles decorreu em simultâneo com o presente estudo. Os resultados destes estudos evidenciaram que níveis mais elevados de esperança estavam associados, de forma positiva, a níveis mais elevados de satisfação com a vida (Hexdall & Huebner, 2007) e de QdVrS (Germann et al., 2015) nas crianças com cancro e seus pais. De forma semelhante, Grootenhuis e Last (2001) verificaram que quando as crianças com cancro manifestavam expectativas mais positivas em relação à doença, estas apresentavam níveis mais elevados de ajustamento emocional, um padrão análogo ao observado nos pais de crianças com cancro (Maurice-Stam, Oort, Last, & Grootenhuis, 2008). Um outro contributo para a compreensão da esperança, é oferecido por um estudo qualitativo retrospectivo, realizado com uma amostra portuguesa. Amorim (2015) verificou que o pensamento positivo e a esperança foram muito utilizadas pelos pais de crianças com cancro como formas de lidar com a doença.

3.3. Fatores familiares

3.3.1. Relação de casal

As relações interpessoais dentro da família podem ser conceptualizadas como um fator de risco ou como um recurso para o processo de adaptação individual e familiar (Field & Duchoslav, 2009). A teoria da vinculação, desenvolvida a partir dos trabalhos pioneiros de John Bowlby e de Mary Ainsworth (Ainsworth & Bowlby, 1991), constitui um importante contributo para a compreensão das relações interpessoais, nomeadamente da relação de casal.

Bowlby (1988) considera que o ser humano é dotado de um conjunto de sistemas, entre os quais o sistema de vinculação destinado à regulação da predisposição inata para a formação de laços emocionais com a função biológica específica de garantir a proteção face a situações de adversidade. Deste sistema decorre um conjunto diversificado de comportamentos de vinculação como chorar ou o chamar que resultam na obtenção ou na manutenção da proximidade a uma determinada figura, concebida como protetora (figura de vinculação). É a partir das experiências com a figura de vinculação, que a criança vai recolhendo informações e construindo expectativas sobre a sua acessibilidade e

responsividade. Com a repetição, a criança vai construindo os modelos internos dinâmicos, um conjunto de representações mentais sobre o mundo, o comportamento da figura de vinculação e o seu próprio comportamento e como cada um interage com os restantes (Bowlby, 1973). Assim a reação da criança face à situação de ameaça, de *stress* é determinada pela confiança, que é gerada pela perceção de si próprio (enquanto sujeito merecedor de amor e atenção, capaz de desencadear na figura de vinculação a sensibilidade e a disponibilidade para responder às necessidades em causa; modelo do *self*) e da perceção dos outros (enquanto figuras acessíveis e responsivas para fornecer o apoio e proteção; modelo dos outros). Uma vez formados, os modelos internos dinâmicos orientam pensamentos, sentimentos e comportamentos, sendo passíveis de serem revistos e modificados através de experiências desconfirmatórias ou do confronto com novos períodos desenvolvimentais (Bowlby, 1973). Embora Bowlby reconhecesse a importância da vinculação ao longo da vida, os seus trabalhos, bem como os de Ainsworth centraram-se, sobretudo, na infância. Porém a vinculação no adulto diferencia-se da vinculação na infância, entre outros motivos, por ser tipicamente estabelecida entre pares, sendo que ambos também se constituem como figuras prestadoras de cuidados, por não se destacar tanto de outros sistemas comportamentais e por incluir relações de natureza sexual (Weiss, 1982).

Relativamente à vinculação no adulto importa salientar os trabalhos de Mary Main e colaboradores e os trabalhos de Cindy Hazan e de Philips Shaver. Os primeiros procuraram avaliar a vinculação adulta através das memórias acerca das suas experiências de infância (Main, Kaplan, & Cassidy, 1985), enquanto os segundos focaram-se no momento presente e conceptualizaram o amor romântico enquanto processo de vinculação (Hazan & Shaver, 1987). Importa salientar, ainda, o modelo bidimensional de vinculação no adulto (*Model of adult attachment*) proposto por Kim Bartholomew (1990). Este modelo organiza-se em torno da positividade e negatividade dos modelos do *self* e dos outros, que resultam em quatro possibilidades de combinação (Bartholomew & Horowitz, 1991). Estas quatro categorias prototípicas (seguro, preocupado, amedrontado, desinvestido) são compreendidas como combinações de duas dimensões fundamentais na vinculação adulta: a ansiedade e o evitamento (Brennan, Clark, & Shaver, 1998; Griffin & Bartholomew, 1994).

3.3.1.1. Vinculação amorosa evitante/ansiosa

A literatura tem sugerido que a vinculação amorosa é uma variável chave na conjugalidade, associada à qualidade da relação de casal e com potenciais efeitos em todo o sistema familiar (Mikulincer, Florian, Cowan, & Cowan, 2002). Esta variável reveste-se de contornos particulares ao estar associada a um contexto de doença, dado que os estilos de vinculação estão particularmente pronunciados em situações indutoras de *stress* que representam uma ameaça à sobrevivência (Bowlby, 1982). Neste sentido, a inclusão da

vinculação ao par amoroso parece particularmente relevante para a compreensão dos determinantes do funcionamento familiar no cancro pediátrico.

Os pais são confrontados com um conjunto de exigências, incluindo lidar com uma doença que pressupõe o risco de vida de um filho/a. Perante esta forte ameaça, os pais podem procurar proteção e conforto junto do seu cônjuge, enquanto figura de vinculação (Hazan & Shaver, 1987), usando a relação de casal como uma base segura. Contudo, neste contexto, é igualmente válida a ocorrência de padrões mal-adaptativos associados a uma vinculação insegura (ansiosa ou evitante; Nicholls, Hulbert-Williams, & Bramwell, 2014).

Os indivíduos com uma vinculação amorosa ansiosa tendem a apresentar preocupação e dúvida acerca da disponibilidade do parceiro e medo de abandono; apresentam baixa autoestima, frequente labilidade emocional e envolvem-se mais facilmente em conflitos, podendo adotar estratégias de hiperactivação do sistema de vinculação, por forma a tentar manter a proximidade (p. ex. expressão de tristeza ou desconforto). Os indivíduos com uma vinculação amorosa evitante procuram manter distanciamento emocional e independência do cônjuge (tendendo, por exemplo, a desconfiar das “boas intenções” dos outros) e podem adotar estratégias de desativação do sistema de vinculação; ao minimizarem ou negarem as suas próprias necessidades de vinculação, assim como as dos outros, e apresentam dificuldades em estabelecer e manter relações íntimas (Mikulincer & Shaver, 2007).

De acordo com o modelo sistémico da vinculação segura nas relações de casal (*Systemic model of attachment security in couple relationships*), a vinculação segura estaria associada à qualidade da relação de casal, o que teria um “efeito cascata” em todo o sistema familiar (Mikulincer et al., 2002). Partindo deste modelo, é possível perspetivar que uma vinculação amorosa ansiosa ou evitante possa ter impacto negativo na qualidade da relação conjugal, e consequentemente no funcionamento familiar. Porém, são escassos ou inexistentes, se considerarmos o contexto do cancro pediátrico, os estudos que conhecemos que analisaram o impacto da vinculação amorosa no funcionamento familiar avaliado através de diferentes indicadores como a coesão ou os rituais familiares. Relativamente ao evitamento, este tem sido associado, de forma negativa, à coesão familiar e aos rituais familiares (Crespo, Davide, Costa, & Fletcher, 2008; Mikulincer & Florian, 1999b; Pedro, Ribeiro, & Shelton, 2015). Já em relação à vinculação ansiosa, os resultados têm sido pouco consensuais. Se, por um lado, alguns estudos sugerem que a vinculação ansiosa está positivamente associada à coesão familiar (Mikulincer & Florian, 1999b), outros não encontraram qualquer associação quer com a coesão familiar (Pedro et al., 2015), quer com os rituais familiares (Crespo et al., 2008).

3.3.2. Funcionamento familiar

O funcionamento familiar tem sido mais frequentemente conceptualizado como um *resultado de adaptação* (Brown, 2002; Vrijmoet-Wiersma et al., 2008), sendo poucos os

estudos que se têm debruçado sobre o contributo do funcionamento familiar (p. ex. coesão familiar e rituais familiares) para o processo de adaptação individual no cancro pediátrico (cf. Ponto 2.4 da presente secção).

3.3.2.1. *Rituais familiares*

Tem-se sugerido a importância de considerar a influência dos rituais familiares para a saúde da família, na medida em que podem ser contextos privilegiados para promover o bem-estar dos seus membros (Fiese, 2007). Num estudo dedicado à revisão sistemática sobre os rituais e rotinas familiares no contexto de uma condição crónica de saúde, Crespo et al. (2013) verificaram que os mesmos desempenhavam três grandes funções: a de recurso estratégico (*strategic resources*) para lidar com os desafios da condição; a de oportunidade para fornecer e receber apoio emocional (*emotional support*); e a de conferir uma sensação de normalidade (*sense of family normalcy*) face aos desafios específicos que subjazem à presença de uma condição crónica de saúde. Além disso e, especificamente, em relação aos rituais familiares tem sido preconizado que em condições indutoras de *stress* e/ou em épocas de transição, os rituais familiares podem ser benéficos para a adaptação, nomeadamente através da estabilidade que estes eventos proporcionam (Fiese, 2006; Markson & Fiese, 2000). Na verdade, de acordo com Imber-Black e Roberts (1993), os rituais familiares “provide an anchor, a steady point for you and those close to you when are experiencing intense change” (p. 301), aspeto que poderá ser bastante pertinente no cancro pediátrico, dadas as características da doença (início abrupto, trajetória incerta). No que respeita aos resultados das investigações não é do nosso conhecimento a existência de estudos que se tenham debruçado sobre o impacto dos rituais familiares na adaptação de crianças diagnosticadas com cancro e dos seus pais. Contudo os resultados das investigações realizadas no contexto de uma condição crónica de saúde em idade pediátrica, mostraram que os rituais familiares estavam associados a resultados superiores em diversos indicadores de adaptação, especificamente: melhor QdVrS, menos problemas emocionais e comportamentais (Santos, Crespo, Silva, & Canavarro, 2012) ou menor sintomatologia ansiosa (Markson & Fiese, 2000). Por exemplo, Markson e Fiese (2000), verificaram que num contexto de elevado *stress* relacionado com a saúde, quando as mães atribuíram maior significado aos rituais familiares, as crianças reportaram níveis mais baixos de sintomatologia ansiosa, tendo concluído que os rituais familiares podem exercer um fator protetor. O mesmo estudo evidenciou que um maior significado atribuído aos rituais familiares estava associado a uma menor sintomatologia ansiosa por parte de crianças diagnosticadas com asma (Markson & Fiese, 2000). No mesmo sentido, num estudo efetuado por Santos et al. (2012), com crianças diagnosticadas com asma, constatou-se que um menor significado atribuído aos rituais familiares estava associado a pior QdVrS (geral e genérica) e mais problemas emocionais e comportamentais. No que respeita aos pais, Manne et al. (1995) num estudo com pais de

crianças diagnosticadas com cancro, verificaram que um menor envolvimento em atividades familiares estava associado a níveis mais elevados de sintomatologia depressiva.

3.3.2.2. *Coesão familiar*

A par dos rituais familiares, a literatura tem mostrado que a coesão familiar é benéfica para a adaptação individual ao cancro pediátrico. Por exemplo, Manne et al. (1995), Kazak et al. (1998), Klassen et al. (2007) verificaram que os pais que percecionavam a sua família como mais coesa apresentavam menor sintomatologia ansiosa e depressiva e melhor QdV. Paralelamente, outros autores também verificaram a existência de uma associação positiva entre a coesão familiar e a QdVrS para as crianças com cancro (p. ex. Barakat et al., 2010).

3.3.3. *Sobrecarga financeira*

Vários estudos têm sugerido que o cancro pediátrico tem subjacente um conjunto de desafios ao nível económico. Além do aumento das despesas (p. ex. deslocações para a Unidade de Oncologia Pediátrica, custos acrescidos com a alimentação, higiene e medicamentos), habitualmente um dos pais deixa de trabalhar para assumir o papel de cuidador, o que acarreta consequências para o rendimento familiar (Eiser & Eiser, 2007; Fletcher, 2010; Warner et al., 2015). Embora a atual legislação Portuguesa contemple políticas de proteção da saúde (p. ex. comparticipação do protocolo terapêutico a crianças com cancro) e políticas sociais de proteção à criança e à família (p. ex. atribuição de subsídio, que corresponde a 65% da remuneração de referência, para assistência a filho com doença crónica que se destina a compensar o acréscimo de encargos familiares resultantes da situação de doença) é de esperar uma diminuição no rendimento familiar, uma vez que estas medidas não cobrem todas as despesas associadas à doença e ao tratamento, nem representam a totalidade do ordenado do progenitor que fica impedido de exercer a sua atividade laboral devido à necessidade de prestar assistência ao filho. Assim, à semelhança do que ocorre noutros países, com um sistema de saúde universal (Eiser & Eiser, 2007), é expectável que haja um desequilíbrio no rendimento familiar, pelo que se justifica a inclusão da sobrecarga financeira e do nível socioeconómico para a compreensão do processo de adaptação individual dos pais.

A perceção de sobrecarga financeira associada à prestação de cuidados ou impacto económico da doença na família (Stein & Riessman, 1980) tem sido apontada na literatura como um fator que influencia negativamente vários indicadores de adaptação individual dos pais (P. D. Creswell, Wisk, Litzelman, Allchin, & Witt, 2014; Klassen, Raina, et al., 2011; Wiener, Kazak, Noll, Patenaude, & Kupst, 2015). Por exemplo, P. D. Creswell et al. (2014), conduziram um estudo com pais (92% mães) de crianças (2-18 anos) com cancro na fase de tratamento e de pós-tratamento. Estes autores verificaram que os pais que percecionaram

maior sobrecarga financeira reportaram sintomatologia depressiva clinicamente significativa. Estes autores concluíram que as dificuldades financeiras foram particularmente pronunciadas no cancro pediátrico, comparativamente ao grupo de controlo de pais de crianças saudáveis, e que não se circunscreveram à fase de tratamento. Porém, noutros estudos, não foi encontrada qualquer associação. Por exemplo, num estudo longitudinal com mães de crianças (9 meses-18 anos) com cancro na fase de tratamento e de pós-tratamento, P. Sloper (2000) não encontrou qualquer associação transversal ou longitudinal entre os problemas financeiros e o sofrimento emocional das mães. Estes resultados inconsistentes sugerem que a sobrecarga financeira pode estar associada a pior adaptação para alguns, mas não para todos os pais.

3.3.4. Nível socioeconómico

Relativamente ao nível socioeconómico, alguns autores verificaram que um nível socioeconómico mais elevado estava associado a melhor QdV das crianças com cancro (Litzelman et al., 2013) e que um rendimento familiar anual mais elevado estava associado a melhor QdV dos pais (Klassen et al., 2008). Também, Baskin, Forehand e Saylor (1985) verificaram que mães com menor nível socioeconómico relataram níveis mais elevados de *coping* focado nas emoções, e que este estilo de *coping* foi associado a pior ajustamento psicológico. No mesmo sentido, outros autores verificaram que os pais com um nível socioeconómico mais baixo reportavam níveis mais elevados de sintomatologia depressiva (Iqbal & Siddiqui, 2002). Porém, outros autores não têm encontrado qualquer associação entre o nível socioeconómico e a QdV das crianças (p. ex. Landolt et al., 2006; Russell et al., 2006).

Em suma, na determinação dos diferentes processos de adaptação individual e do funcionamento familiar ao cancro pediátrico podem estar envolvidos diferentes fatores de influência. Embora ao longo dos pontos anteriores tenha sido feita uma exposição dos diversos fatores de influência, separadamente, de modo a organizar a informação proveniente da literatura, esta separação constitui um “artifício”, uma vez que estes fatores coexistem e exercem os seus efeitos de forma interdependente. A complexidade das múltiplas influências justifica uma abordagem orientada para os sistemas em que a criança com cancro e sua família estão inseridas.

4. Síntese integrativa: Uma abordagem socioecológica da adaptação

Nas últimas décadas têm surgido vários modelos teóricos que salientam diferentes fatores e mecanismos que podem influenciar o processo de adaptação no contexto das condições crónicas de saúde. Um exemplo incontornável é o modelo familiar sistémico da doença (Rolland, 1987), no qual são sublinhados os processos interativos entre as exigências da doença, ao longo do tempo, e os componentes chave do funcionamento familiar; este modelo destacou-se por oferecer uma perspetiva do papel da família como recurso e, por isso, evita a tendência dos modelos que enfatizavam a patologia familiar. Adicionalmente, destacam-se, por exemplo, na compreensão do processo de adaptação da criança e dos seus pais, o modelo de adaptação e confronto com a incapacidade e o *stress*, que possibilita a identificação dos fatores de risco e de resiliência e os processos de adaptação (Wallander, Varni, Babani, Banis, & Wilcox, 1989; Wallander, Varni, Babani, DeHaan, et al., 1989) e o modelo transacional do funcionamento familiar no contexto das condições crónicas de saúde (Fiese & Sameroff, 1989), baseado no modelo transacional de desenvolvimento (Sameroff & Chandler, 1975), que enfatiza as interações recíprocas e contínuas entre a crianças e os pais ao longo do tempo. Porém, a importância de uma leitura multinível que compreenda a criança, a família e o sistema de saúde, a forma como eles se inter-relacionam e o impacto que uns exercem nos outros (Bradford, 1997), justifica a consideração de uma abordagem orientada para os sistemas.

Entre os modelos conceptuais que ilustram uma abordagem orientada para os sistemas destaca-se modelo o socioecológico de adaptação e mudança, baseado no modelo socioecológico (Bronfenbrenner, 1977) e no referencial macro da Psicologia Pediátrica (Kazak, 1989; Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009). Este modelo oferece uma visão integrativa, dinâmica e complexa da adaptação individual e familiar no contexto das condições crónicas de saúde (Kazak, Rourke, & Navsaria, 2009). A criança e os membros da família não são vistos como indivíduos isolados, mas como indivíduos que interagem entre si e com outras pessoas e sistemas. São exemplos destas interações as implicações da doença e do tratamento na vida profissional dos pais e a constante interação entre a família e os profissionais de saúde. Essas transações são multidirecionais e dinâmicas. Por exemplo, a adaptação da família pode afetar a adaptação da criança e vice-versa. Ancorada no princípio sistémico da circularidade, a existência de influências recíprocas entre os elementos da família explica o facto de o temperamento da criança e as características da doença poderem ter impacto nos cuidadores, mas as características dos cuidadores também poderem influenciar o temperamento e a interação com a criança (Brown, 2002; Gerhardt et al., 2016). Além disso, este referencial teórico enfatiza o carácter dinâmico do processo de adaptação, que segue o processo natural de desenvolvimento da criança e da família (Kupst, 1994), mas também da doença (Kazak et al., 2009). Em suma, a criança influencia e é influenciada pelos meios mais próximos, mas os meios mais próximos e os mais distantes interagem entre si e atuam de

acordo com as alterações que resultaram dessa influência recíproca. Assim, a adaptação é influenciada não só pelas características intrínsecas do indivíduo, da doença e do tratamento, mas também pelas características da família e pelo contexto envolvente e pela forma como esses contextos interagem (Kazak, Segal-Andrews, & Johnson, 1995). Adicionalmente, a adaptação pode ser afetada pela interação que resulta das influências do curso de desenvolvimento normativo da criança e da família (p. ex. entrada na adolescência) e do curso de desenvolvimento da doença/tratamento (p. ex. tempo desde o diagnóstico, fases do cancro pediátrico). Por exemplo, o final do tratamento tem subjacente um conjunto de desafios novos para a criança e para a sua família, que dependendo da fase de desenvolvimento em que se encontra, influenciará de forma distinta a adaptação (Kazak et al., 2009).

A representação esquemática deste modelo (Figura 3) é feita através de circunferências concêntricas, o que denota que os níveis mais próximos (i.e., microssistema e mesossistema) exercem um papel mais determinante na adaptação da criança e da família, sem, contudo, negligenciar os níveis mais distantes (i.e., exossistema e macrosistema).

A criança é colocada no centro de quatro circunferências concêntricas e interativas. A primeira circunferência designada de microssistema, representa os contextos mais próximos da criança, nos quais está envolvida e com os quais contacta diretamente (p. ex. escola, amigos). Outros microssistemas importantes incluem a família e os subsistemas da família (p. ex. a relação de casal, a interação entre os pais e a criança).

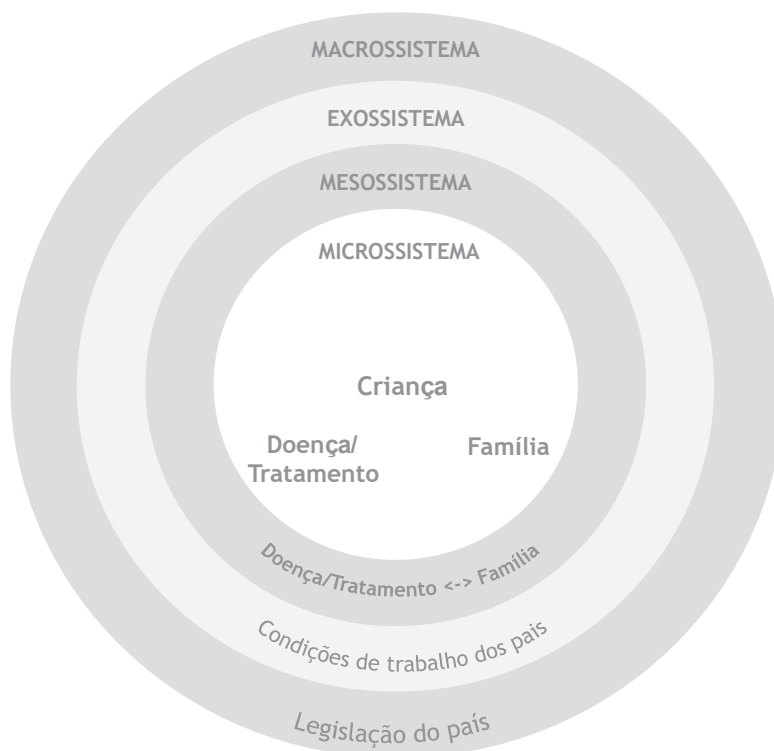


Figura 3 | Modelo Sócioecológico de Adaptação e Mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009; reproduzido com autorização dos autores).

Para Kazak, Rourke e Crump (2003) a doença/tratamento (p. ex. intensidade do tratamento) e a equipa de profissionais de saúde envolvidos são também um microsistema a considerar pelas influências que exercem na criança e na família, mesmo após o tratamento. Esta é uma das principais novidades deste modelo, que possibilitou a concetualização das variáveis ligada à doença e ao contexto dos cuidados de saúde tão presentes na vida das famílias desde o momento do diagnóstico.

A circunferência seguinte denominada de mesossistema, representa as interações entre dois ou mais microsistemas (p. ex. criança<->doença; família<->doença; família<-> equipa de profissionais de saúde) que têm um efeito na criança e sua família (Kazak et al., 2003). O nível seguinte intitulado exossistema, refere-se aos contextos em que a criança não participa diretamente, mas que a afetam indiretamente (p. ex. rede de suporte dos pais, condições de trabalho dos pais, Hospital). A doença da criança e o seu tratamento pode implicar que os pais falem ou cheguem atrasados ao trabalho. Assim, a flexibilidade da entidade patronal em relação a esta questão pode afetar a criança, indiretamente, através de uma diminuição ou um aumento do *stress* parental (Kazak et al., 2003). Por fim, o nível mais afastado, o macrossistema, diz respeito ao impacto que aspetos como a cultura ou os valores sociais exercem em toda a ecologia. A este nível de influência, considera-se ainda a legislação do país, que se traduz tanto nos serviços de saúde disponíveis, como no apoio do Estado disponibilizado às crianças e às famílias e que pode dificultar ou facilitar a adaptação

da família (Kazak et al., 2009). Apesar de não ser tão exaustivo na descrição dos mecanismos de processos específicos (Radcliffe, Barakat, & Boyd, 2006) comparativamente a outros, este modelo permite explorar o impacto que a condição crónica de saúde tem na adaptação da criança e da família e identificar os fatores que influenciam o processo de adaptação. Adicionalmente, o reconhecimento do curso de desenvolvimento, as influências mútuas, a interdependência entre pais e crianças, o papel mais determinante dos sistemas mais próximos na adaptação da criança e da família (sem negligenciar os sistemas mais distais, como a legislação do país; cf. Ponto 3 da secção anterior) são outras especificidades deste modelo, que confluem para esta escolha deste referencial teórico.

A revisão da literatura permitiu analisar o estado atual de conhecimento sobre a adaptação individual e do funcionamento familiar das famílias de crianças com cancro, sobretudo nas fases de tratamento e de pós-tratamento. De um modo geral, a investigação acompanhou os avanços médicos e o consequente aumento das taxas de sobrevivência, o que se repercutiu no número de estudos que procuraram avaliar a adaptação. Gradualmente, as abordagens simplistas centradas na desadaptação (i.e., nos problemas, no desajustamento e no défice ao nível de indicadores positivos como a QdV) deram lugar a abordagens mais integrativas que procuram explicar a multiplicidade e complexidade de processos de adaptação. É de salientar que os próprios avanços na metodologia de investigação também facilitaram a concetualização e a execução destes estudos que se revestem de crescente complexidade. Retoma-se e expande-se a ideia de Markson e Fiese (2000) de que uma condição crónica de saúde como o cancro pediátrico poder ser concetualizada como um contexto de desenvolvimento e de adaptação individual e familiar. Atendendo à relevância da aplicação prática da investigação para promover a mudança possível neste contexto potencialmente tão adverso, importa cada vez mais identificar “o que funciona e não funciona”, “para quem”, em que condições específicas.

5. Lacunas da investigação no contexto de adaptação ao cancro pediátrico

Os primeiros estudos de cariz psicossocial a incidir no cancro pediátrico começaram a surgir na década de 50 e de 60 do século passado (Spinetta & Maser, 2006). Foi, porém, com os avanços registados ao nível do diagnóstico e do tratamento e consequente mudança na conceção do cancro de doença fatal para condição crónica de saúde, nos anos 70, que os investigadores começaram a interessar-se pela forma como as crianças e os pais lidam com a doença e com o tratamento (Bradford, 1997; D. C. Harper, 1991; Kupst, 1994). Desde então, a adaptação individual e familiar tem sido o foco de várias investigações.

Da informação resultante da revisão da literatura até agora efetuada sobre a adaptação individual e familiar, verificámos que alguns estudos comparativos entre crianças com cancro e seus pais e crianças saudáveis e seus pais não têm encontrado diferenças ao nível da adaptação individual (p. ex. Eiser et al., 2000) e familiar (p. ex. Kazak et al., 1994). Porém, vários outros estudos têm mostrado diferenças na adaptação individual (p. ex. Pai et al., 2007) e familiar (p. ex. Rosenberg et al., 2014), embora estas nem sempre tenham ocorrido no sentido esperado, quer na adaptação individual (p. ex. Phipps & Srivastava, 1997) quer na adaptação familiar (p. ex. Beek et al., 2015).

Estas inconsistências podem dever-se a questões metodológicas e/ou poderão refletir a complexidade dos processos multifatoriais de influência da adaptação que necessitam de ser melhor compreendidos. De seguida, identificam-se algumas lacunas atuais da investigação neste domínio que dividimos em duas grandes áreas: (1) questões metodológicas e (2) temas e conteúdos.

5.1. Questões metodológicas

5.1.1. Variabilidade das fases do cancro pediátrico

O cancro pediátrico pode ser perspectivado como uma doença constituída por diferentes fases às quais estão associados diferentes desafios médicos e psicossociais (Alderfer & Kazak, 2006; Varni et al., 2002). Assim, a não identificação da(s) fase(s) de tratamento, num determinado estudo (Morris et al., 1997), pode limitar a interpretação dos resultados. Adicionalmente, os estudos existentes em torno da fase de pós-tratamento são heterogéneos ao nível da definição da mesma, na medida em que nem sempre definem o limite temporal máximo deste período (Cardarelli et al., 2006). Assim, considera-se que a identificação da fase do cancro pediátrico (i.e., fase de diagnóstico, fase de tratamento e fase de pós-tratamento) em termos gerais e a definição do limite temporal máximo da fase de pós-tratamento, em particular, é fundamental, sobretudo para os estudos que procuram compreender quais os fatores clínicos que concorrem para a adaptação neste contexto.

5.1.2. Instrumentos de avaliação utilizados na avaliação da adaptação individual das crianças

5.1.2.1. Medidas gerais vs. medidas genéricas, medidas específicas para o cancro pediátrico

Um dos principais indicadores de adaptação no contexto do cancro pediátrico é a QdVrS, que tem sido avaliado através de medidas gerais, genéricas e específicas (Eiser & Morse, 2001; Wiebe, Guyatt, Weaver, Matijevic, & Sidwell, 2003). Tal como representado na Figura 4, a utilização de medidas gerais permite a comparação entre indicadores de crianças com cancro e de crianças saudáveis. Apesar da importância da utilização deste tipo de medidas, cujas características psicométricas estão bem estabelecidas, alguns autores têm sugerido que estes instrumentos podem não ser suficientemente sensíveis para avaliar a experiência do cancro pediátrico.

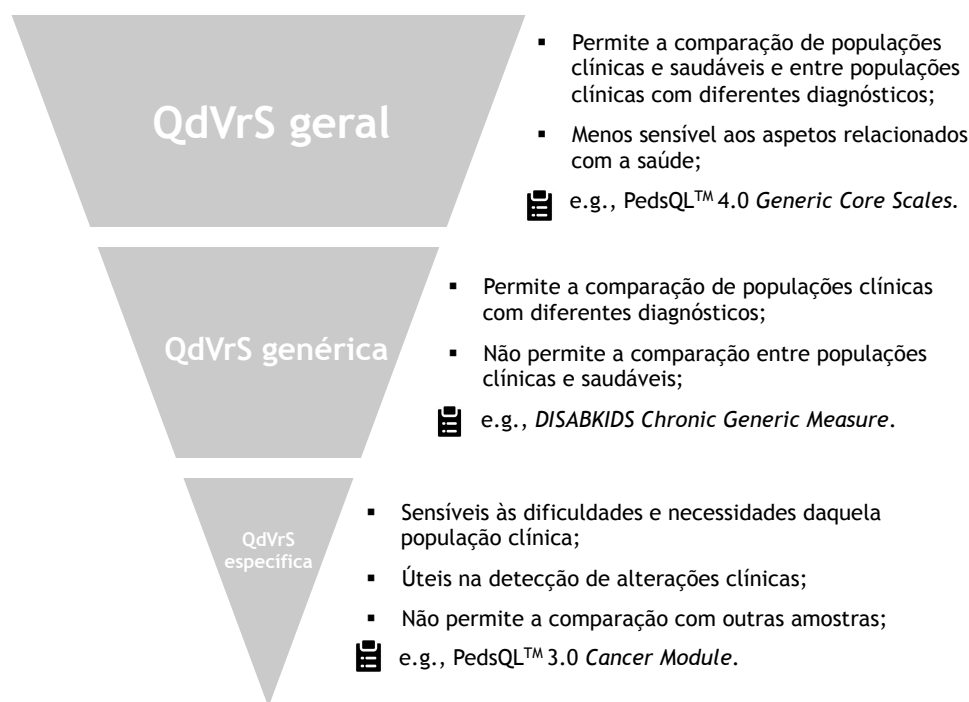


Figura 4 | Breve caracterização dos diferentes tipos de instrumentos de avaliação da QdVrS (geral, genérica e específica)

De facto, a propósito da revisão sistemática e na ausência de diferenças entre crianças com cancro e crianças saudáveis, no que diz respeito a medidas de ajustamento psicológico, Eiser et al. (2000) reconheceram que, entre outros aspetos, a utilização, nos estudos revistos, de instrumentos estandardizados que avaliam dimensões gerais do ajustamento, pode ter sido uma limitação uma vez que estes instrumentos podem ser menos sensíveis às especificidades da doença e do tratamento e, por isso, menos capazes de avaliar o impacto do cancro em particular. Neste âmbito, Kazak (2005), Hobbie et al. (2000) e Eiser

(2004) concluíram que as medidas tradicionais ou gerais de psicopatologia e bem-estar podem não ser suficientes para avaliar o impacto do cancro nesta população. Adicionalmente, e especificamente em relação à QdVrS, os estudos continuam a denunciar variabilidade nos domínios que são incluídos nas definições de QdVrS (à exceção dos domínios físico, mental e social, delineados pela OMS; WHO, 1948), centrando-se em diferentes aspetos do funcionamento da criança (Levi, 2006).

5.1.2.2. *Hetero-relatos vs. auto-relatos*

A avaliação da QdVrS em idade pediátrica levanta outra questão que se relaciona com quem a reporta, i.e., quem preenche os questionários. Muitas investigações têm optado por solicitar aos pais que reportem sobre a QdVrS dos filhos (p. ex. Speechley et al., 2006), porém alguns autores têm advertido que por se tratar de uma apreciação subjetiva a avaliação deste constructo deve ser feita pelas próprias crianças (Varni, Limbers, & Burwinkle, 2007). Este argumento ganha mais força quando acompanhado dos resultados dos estudos que analisaram a concordância entre os hetero-relatos e os auto-relatos, na medida em que estes nem sempre foram coincidentes (Earle, Clarke, Eiser, & Sheppard, 2007), inclusivamente no cancro (Savage, Riordan, & Hughes, 2009), reforçando a relevância de aceder à QdVrS das crianças através de auto-relatos.

Face ao exposto, torna-se fundamental (1) a utilização de questionários apropriados para a idade e nível cognitivo das crianças, permitindo que estas possam relatar a sua própria qualidade de vida; (2) a utilização isolada, ou complementada com medidas genéricas de avaliação da QdVrS, de medidas específicas para o cancro pediátrico, como o Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module (PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*; (Varni et al., 2002). Contudo, e especificamente, em Portugal, a inexistência de medidas específicas válidas, fiáveis e adaptadas ao contexto nacional que avaliem a QdVrS (específica) de crianças com cancro também tem limitado a investigação acerca deste tópico.

5.1.3. Desenho metodológico dos estudos

5.1.3.1. *Estudo qualitativo*

O reconhecimento da importância das significações individuais e a constatação de que, nem sempre, os estudos quantitativos permitem o acesso à riqueza desses processos subjetivos (Seidman, 2006) têm contribuído para o crescente número de investigações qualitativas na área da saúde. Especificamente em relação à Psicologia Pediátrica, apesar de se registar um maior número de publicações de estudos que privilegiam metodologias quantitativas em revistas como o *Journal of Pediatric Psychology*, as orientações recentes têm evidenciado a importância de aumentar o número e a qualidade de investigações qualitativas, sobretudo no estudo de questões novas ou pouco exploradas (Wu, Thompson, Aroian, McQuaid, & Deatrck, 2016). Os autores têm, cada vez mais, reconhecido a

importância de aceder aos significados subjetivos dos indivíduos em contexto real, identificar condições contextuais importantes (Yin, 2015) e, assim, melhor compreender as perspetivas e as necessidades dos pacientes e das suas famílias e desenvolver intervenções mais eficazes (Wu et al., 2016).

Considerando a escassez de estudos a incidir sobre a vivência familiar das condições crónicas de saúde, mais especificamente, sobre a dimensão específica dos rituais familiares em famílias com crianças com uma condição crónica de saúde (Crespo et al., 2013) e a inexistência de estudos empíricos no contexto do cancro pediátrico, tornou-se incontornável o recurso à metodologia qualitativa de investigação no presente estudo.

5.1.3.2. Não-independência da díade crianças/pais

Não obstante o reconhecimento que as implicações do cancro pediátrico ultrapassam o nível individual (Alderfer & Kazak, 2006), os estudos têm privilegiado metodologias mais tradicionais que se focam no(s) indivíduo(s) (Germann et al., 2015). Esta opção metodológica afigura-se como uma limitação, na medida em que negligencia a não-independência dos membros da família e mais especificamente das díades (pai ou mãe/criança e pai/mãe; Cook & Kenny, 2005). Descura-se, assim, o facto de as características e resultados dos dois membros da díade serem mais semelhantes entre si do que entre duas pessoas que não constituem uma díade. De acordo com Kenny, Kashy e Cook (2006) existem quatro fontes que justificam a não-independência da díade: (a) *efeito de composição* - os membros da díade são similares mesmo antes de constituírem a díade; (b) *efeito do parceiro* - as características ou os comportamentos de uma pessoa afetam os resultados/adaptação dela e do outro elemento da díade; (c) *influência mútua* - os resultados/adaptação dos dois membros da díade influenciam-se mutuamente, num processo de feedback; e (d) *destino comum* - os membros da díade foram sujeitos aos mesmos fatores causais.

Considerámos de incontornável importância a utilização de uma metodologia diádica, uma vez que as crianças com cancro e seus pais cumprem com alguns dos requisitos que promovem a não-independência. (p. ex. *efeito do parceiro*). Acresce que, de acordo com o nosso melhor conhecimento, os *efeitos do parceiro* não foram explorados no contexto da adaptação individual e familiar, na investigação no âmbito do cancro pediátrico.

5.1.3.3. Estudo dos processos de moderação e dos mecanismos

Sendo reconhecida a imensa variabilidade das respostas individuais e familiares no cancro pediátrico (p. ex. Bradford, 1997), importa, neste momento, desenvolver investigações que permitam explicar essas diferenças, nomeadamente através do estudo de fatores preditores e dos efeitos complexos na associação entre variáveis. Mais especificamente, através do estudo da influência de variáveis moderadoras¹² ou do estudo de

¹² Um moderador é uma variável que tem um impacto na associação entre duas variáveis, na medida em que altera a força ou a direção entre essas variáveis (Holmbeck et al. 2009).

variáveis mediadoras que possa explicar ou mediar a relação entre variáveis¹³ (Holmbeck, Zebracki, & Mcgoron, 2009).

5.2. Temas e conteúdos

5.2.1. Adaptação individual

Um grande número de investigações tem operacionalizado a adaptação individual considerando apenas indicadores de funcionamento negativo, como a presença de sintomatologia psicopatológica (p. ex. Kersun, Rourke, Mickley, & Kazak, 2009). No presente estudo procurámos conhecer o impacto da experiência do cancro na sintomatologia negativa, mas também em indicadores de adaptação mais positivos como a QdV/QdVrS.

5.2.1.1. Fatores clínicos

Alguns estudos sugerem a importância de distinguir as crianças submetidas a protocolos de tratamento mais intensivos (Landolt et al., 2006) das restantes ou de considerar o tempo desde o diagnóstico (M. Sawyer et al., 1999) ou a fase de tratamento (Meeske, Katz, Palmer, Burwinkle, & Varni, 2004). Contudo, as investigações existentes nem sempre contemplaram estas variáveis (Morris et al., 1997). Além disso, e especificamente em relação contexto Português, a inexistência de instrumentos objetivos válidos, fiáveis e adaptados para avaliar a intensidade do tratamento também tem limitado a investigação acerca deste tópico e tem condicionado a composição das amostras. Por exemplo, à falta de uma medida que avaliasse o tipo de tratamento e os efeitos secundários associados, Araújo (2011), optou por circunscrever os critérios de inclusão a crianças com leucemia ou linfoma e seus pais e limitar o tamanho da amostra ($N = 21$ díades).

5.2.1.2. Fatores individuais e familiares

Além das lacunas existentes na consideração dos fatores clínicos, a compreensão da adaptação individual tem frequentemente carecido de uma abordagem complexa que considere diferentes níveis sistémicos de influência (Barakat et al., 2010), a interdependência entre esses fatores e contextos e os processos de estabilidade e mudança (nomeadamente da criança, da família e da doença/tratamento). Especificamente em relação aos fatores de influência, de um modo geral, grande parte da atenção foi dedicada ao estudo de fatores de vulnerabilidade (p. ex. Klassen et al., 2012). Porém, menos atenção foi dada ao estudo dos fatores que protegem os indivíduos do risco de não adaptação que está associado à situação de adversidade.

¹³ Um mediador é uma variável através da qual uma variável independente influencia uma variável dependente (Holmbeck et al. 2009).

5.2.2. Adaptação familiar

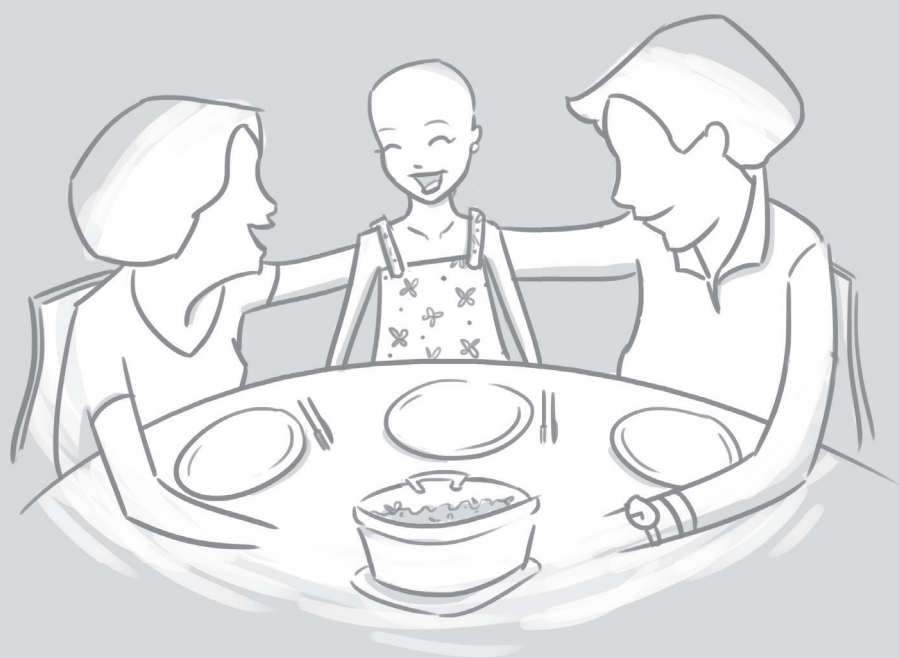
Os dados resultantes das investigações existentes sobre o funcionamento familiar têm sido pouco claros; além de não existirem estudos focados nos rituais familiares (Crespo et al., 2013), os resultados dos estudos que incidiram na coesão familiar são contraditórios (Van Schoors, Caes, Verhofstadt, Goubert, & Alderfer, 2015). Esta heterogeneidade dos resultados reforça a necessidade de contemplar variáveis familiares e variáveis clínicas (p. ex. tempo desde diagnóstico) que possam estar a influenciar o funcionamento familiar. Embora seja consentâneo que os processos inerentes à vinculação possam estar particularmente pronunciados em situações indutoras de *stress* (Bowlby, 1982), como a fase de tratamento, a vinculação não tem sido considerada no estudo sobre o funcionamento familiar. Também neste âmbito, a maioria dos estudos nem sempre incluiu amostras de crianças e pais, o que impossibilita o estudo das influências recíprocas entre pais e filhos.

Os rituais familiares afiguram-se como importantes indicadores de adaptação familiar à doença, na medida em que são passíveis de serem interrompidos numa situação de *stress* (Reiss, 1982; Steinglass, 1998), como a fase de tratamento. Contudo, o conhecimento atual acerca dos rituais familiares em famílias com crianças com cancro carece de investigação empírica, fundamentando-se em assunções teóricas e dados clínicos (Imber-Black, 2014; Roberts, 2003b) ou em dados provenientes de estudos realizado no contexto de outras condições crónicas de saúde (Markson & Fiese, 2000; Rodger & Umaibalan, 2011).

Em suma, face às limitações da investigação internacional existente, à falta de instrumentos válidos e à escassez de estudos nacionais (Amorim, 2015; Araújo, 2011), até agora não era possível compreender de forma mais aprofundada e integrada, a experiência das crianças com cancro e seus pais. Esta lacuna foi o principal motor deste trabalho, pelo que pretendemos estudar os fatores e contextos de influência para a adaptação individual das crianças e dos seus pais nas fases de tratamento e de pós-tratamento e a adaptação familiar na fase de tratamento. O *leitmotiv* do presente estudo encontra-se alinhado com o plano estratégico da SIOPE para todos os países europeus, a implementar nos próximos dez anos, que visa a melhoria da adaptação, mais especificamente da QdV, dos sobreviventes (Vassal et al., 2016).

CAPÍTULO II

ENQUADRAMENTO METODOLÓGICO



Capítulo II | Enquadramento Metodológico

1. Apresentação do projeto de investigação

O presente trabalho foi desenvolvido no âmbito do projeto de investigação “Adaptação individual e familiar no cancro pediátrico: Fatores e contextos de influência” integrado no grupo de investigação “Relações, Desenvolvimento & Saúde” do Centro de Investigação do Núcleo de Estudos e Intervenção Cognitivo-Comportamental (Unidade de I&D da Fundação para a Ciência e a Tecnologia) da Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (<http://www.fpce.uc.pt/saude/>). Este projeto incluiu também a realização de um período de formação complementar, nomeadamente um estágio de investigação de seis meses, que ocorreu entre 2 de março de 2014 e 28 de agosto de 2014, no Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children’s Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, em Wilmington, Delaware, nos USA, sob a orientação e supervisão da Professora Doutora Anne E. Kazak.

A componente empírica deste trabalho é apresentada em seis estudos empíricos, que foram planificados para dar resposta a questões e objetivos específicos, de forma a colmatar algumas das lacunas identificadas e a escassez de estudos em Portugal. Dos seis estudos empíricos apresentados, cinco encontram-se publicados em revistas internacionais (**Estudo I, II, III, IV e V**) e um encontra-se submetido para publicação (**Estudo VI**). Os estudos são apresentados nas várias secções que constituem o capítulo seguinte, nas quais será feita uma exposição detalhada e específica dos objetivos e do método para cada estudo empírico (p. ex. participantes e procedimentos, instrumentos e análise de dados).

Uma vez que os estudos são independentes, utilizando metodologias de análise e recortes da amostra distintos, parece-nos fundamental apresentar a forma como o estudo, na sua globalidade, foi conduzido. Assim, no presente capítulo, começamos por descrever os objetivos gerais da investigação e apresentar as opções metodológicas inerentes à sua concretização, de modo a proporcionar uma visão global do projeto de investigação.

2. Objetivos do projeto de investigação

A revisão da literatura apresentada na secção II do capítulo anterior permitiu analisar o estado da arte e identificou lacunas na investigação sobre a adaptação das crianças com cancro e dos pais e sobre o funcionamento familiar. Com este projeto de investigação

procurámos colmatar algumas dessas lacunas e superar algumas das limitações metodológicas dos estudos existentes. Considerando o atual estado da arte, procurámos desenvolver um projeto de investigação que contribuísse para:

1. Colmatar limitações questões metodológicas na avaliação da intensidade do tratamento e da QdVrS (específica) em crianças com cancro nas fases de tratamento e de pós-tratamento (**Estudo I e II**).
2. Identificar os principais fatores (clínicos, individuais e familiares) que influenciam a adaptação individual de crianças com cancro e dos seus pais nas fases de tratamento e de pós-tratamento (**Estudo I, III e IV**).
3. Compreender os fatores familiares que influenciam o funcionamento familiar na fase de tratamento e a sua importância ao longo do tempo, na perspectiva dos pais e das crianças com cancro (**Estudo V**).
4. Compreender as percepções subjetivas e os significados associados à vivência dos rituais familiares na fase de tratamento a partir da perspectiva das mães (**Estudo VI**).

Alguns dos objetivos específicos de cada um dos estudos empíricos são apresentados no Quadro 1.

Quadro 1 | Objetivos específicos da investigação.

Estudos empíricos	Objetivos específicos	Fases do cancro pediátrico	
		Fase de tratamento	Fase de pós-tratamento
Estudo I	-Traduzir e adaptar o ITR 3.0, bem como estudar as suas características psicométricas numa amostra de crianças com cancro; -Comparar a QdVrS (genérica) de crianças com cancro, atendendo à intensidade do tratamento (reportada pelo médico oncologista pediátrico).	✓	✓
Estudo II	-Traduzir e adaptar o PedsQL™ 3.0 <i>Cancer Module</i> , bem como estudar as suas características psicométricas numa amostra de crianças com cancro. -Examinar a relação entre o significado dos rituais familiares e a QdV/QdVrS (específica), analisando o papel mediador da coesão familiar e da esperança, numa amostra de crianças com cancro e seus pais; -Investigar os efeitos do significado dos rituais familiares dos pais na QdVrS (específica) das crianças, via coesão familiar (das crianças) e esperança (das crianças) e vice-versa; -Testar a validade do modelo em diferentes grupos: etário (criança vs. adolescente), fases do cancro pediátrico (fase de tratamento vs. fase de pós-tratamento) e nível socioeconómico da família (baixo vs. médio-elevado).	✓	✓
Estudo III	-Analisar o papel moderador do significado dos rituais familiares na relação entre a sobrecarga financeira e a sintomatologia ansiosa/depressiva, numa amostra de mães de crianças com cancro. -Examinar o significado dos rituais familiares e a coesão familiar ao longo de dois momentos da fase de tratamento (no início da fase de tratamento e seis meses depois), numa amostra de crianças com cancro e seus pais;	✓	✓
Estudo V	-Investigar o papel preditivo da vinculação amorosa dos pais no significado dos rituais familiares e na coesão familiar (das crianças e dos pais) seis meses mais tarde; -Examinar a relação entre a vinculação amorosa dos pais e a coesão familiar (das crianças e dos pais) direta e indiretamente via significado dos rituais familiares (das crianças e dos pais).	✓	✓
Estudo VI	-Compreender as percepções subjetivas e os significados associados à vivência dos rituais familiares numa amostra de mães de crianças com cancro.	✓	✓

3. Opções metodológicas

De seguida, descrevemos sucintamente a forma como o projeto de investigação foi implementado.

3.1. Desenho da investigação

O projeto de investigação assentou num desenho metodológico misto, simultâneo QUAN+QUAL (J. W. Creswell, 2009; J. W. Creswell & Plano Clark, 2011; cf. Figura 1). No contexto da abordagem quantitativa, foram efetuados quatro estudos de natureza transversal (**Estudo I, II, III e IV**) e um de natureza longitudinal (**Estudo V**). Quanto ao método qualitativo, foi realizado um estudo de natureza transversal (**Estudo VI**).

Os estudos de cariz quantitativo de natureza transversal tiveram como objetivos principais: 1) a validação dos questionários ITR 3.0 e PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* nas fases de tratamento e de pós-tratamento; 2) a comparação de níveis de QdVrS (genérica) de crianças com cancro na fase de tratamento de acordo com a intensidade do tratamento; 3) o estudo dos fatores individuais e familiares que influenciam a adaptação individual, especificamente o estudo dos mecanismos (mediação) e das condições (moderação) nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Quanto ao estudo que utilizou o método quantitativo de natureza longitudinal, teve como objetivo avaliar diferenças em indicadores do funcionamento familiar ao longo de seis meses da fase de tratamento, bem como identificar determinantes do funcionamento familiar nesta fase.

Complementarmente, e dado o propósito exploratório e a complexidade da situação (J. W. Creswell & Plano Clark, 2011), considerou-se pertinente o recurso à abordagem qualitativa para desenvolver um estudo com cujo objetivo foi explorar a vivência e os significados associados aos rituais familiares na perspetiva das mães, bem como investigar as perceções de mudança/continuidade dos rituais familiares e das suas funções na fase inicial de tratamento.

Como apresentado na Figura 2, com vista a cumprir os objetivos da investigação, a amostra global foi constituída por dois grupos: um grupo de crianças com cancro e seus pais na fase de tratamento e um grupo de crianças com cancro e seus pais na fase de pós-tratamento. Dos seis estudos, quatro incluíram participantes de ambos os grupos (**Estudo I, II, III e IV**) e dois focaram-se, apenas, na fase de tratamento (**Estudo V e VI**).

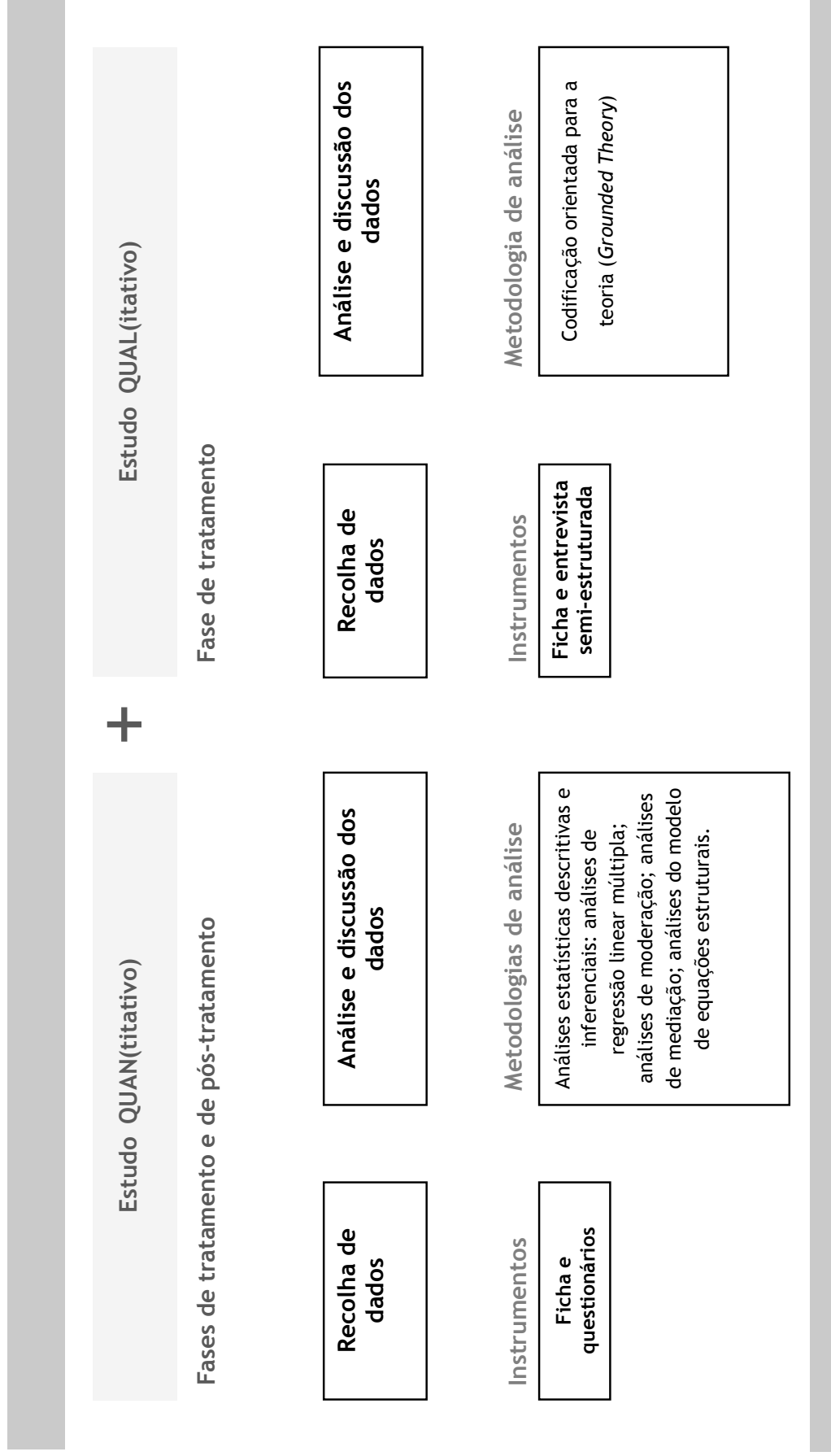


Figura 1 | Mapa metodológico do projeto

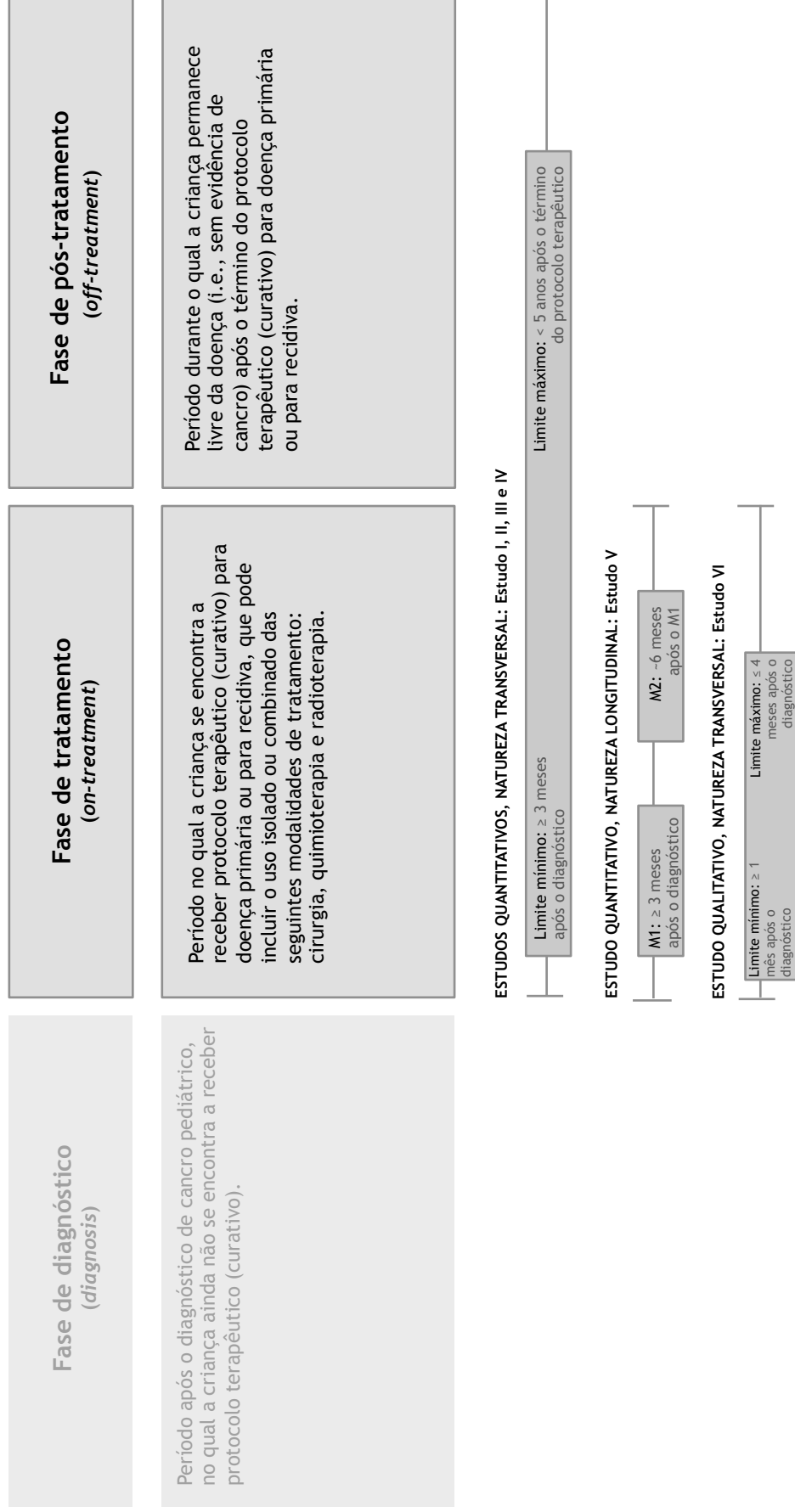


Figura 2 | Desenho da investigação

A fase de tratamento pode ser definida como o período durante o qual a criança se encontra a receber protocolo terapêutico curativo para doença primária ou para recidiva. No presente estudo limitamos a participação a crianças que já tinham tido um período inicial de socialização com a doença (Rolland, 2012), aqui definido como ter recebido o diagnóstico de cancro há pelo menos três meses.

A fase de pós-tratamento pode ser definida como período durante o qual a criança permanece livre da doença, após o término do protocolo terapêutico. Contrariamente à fase de tratamento, a fase de pós-tratamento é mais difícil de limitar temporalmente. Assim, na presente investigação, adotámos os critérios de Rowland (2006) acerca do termo sobrevivente para restringir o limite máximo da fase de pós-tratamento. De acordo com estes critérios, sobrevivente é o indivíduo que permanece livre da doença (ou seja, sem evidência de cancro após a conclusão do tratamento) por um período mínimo de cinco anos. Assim, limitamos a participação a crianças que tinham terminado o protocolo terapêutico há menos de cinco anos, o que nos permitiu criar um grupo mais homogéneo.

Embora a fase de diagnóstico possa ser percecionada como um período particularmente desafiante, é nas fases de tratamento e de pós-tratamento que a criança e os seus pais são confrontadas com as exigências do tratamento e com o seu impacto nas rotinas familiares, os procedimentos evasivos, os efeitos secundários e sequelas do protocolo terapêutico, a ameaça à sobrevivência. Por todas estas razões, a presente investigação incidiu nestas duas fases.

3.2. Participantes e procedimentos de recolha da amostra

3.2.1. Procedimento de recolha da amostra

Em seguida será apresentada uma descrição detalhada da forma como a amostra global foi recolhida, sendo que os diferentes estudos apresentam, posteriormente, a descrição dos procedimentos de recolha das amostras específicas de cada trabalho.

Este projeto de investigação foi submetido a três (o IPOFG-Porto, EPE, o CHSJ, EPE e o Hospital Pediátrico de Coimbra, CHUC, EPE) de um total de quatro Hospitais existentes em Portugal para o tratamento do cancro pediátrico, tendo sido aprovado pelas respetivas Comissões de Ética (ANEXO A). A recolha de amostra decorreu no Serviço de Pediatria do IPOFG-Porto, EPE, no Serviço de Pediatria do CHSJ, EPE, e no Serviço de Oncologia Pediátrica do Hospital Pediátrico de Coimbra, CHUC, EPE. Para cada um destes Serviços foi estabelecido um elo de ligação, ou seja, um profissional de saúde pertencente ao Serviço que era responsável pela colaboração na implementação do estudo e pela articulação com os investigadores no local.

Para os estudos que utilizaram o método quantitativo, recorreu-se a um processo de amostragem consecutiva (Daniel, 2012), que decorreu entre junho de 2012 e fevereiro de 2014. Já para o estudo de cariz qualitativo, recorreu-se a um processo de amostragem

intencional (Patton, 2002), tendo a recolha de amostra decorrido entre julho de 2012 e setembro de 2013. Os critérios de inclusão e de exclusão, por estudo, são apresentados no Quadro 2.

Quadro 2 | Critérios de inclusão e de exclusão por estudo

	Estudos					
	I	II	III	IV	V	VI
Critérios de inclusão						
Diagnóstico de cancro pediátrico há \geq de 1 mês e \leq 4 meses						✓
Diagnóstico de cancro pediátrico há \geq de 3 meses	✓	✓	✓	✓	✓	
Estar a receber protocolo terapêutico para doença primária/recidiva;	✓	✓	✓	✓	✓	✓
Protocolo terapêutico com duração prevista de \geq de 9 meses					✓	
Terminou protocolo terapêutico para doença primária/recidiva há \leq de 5 anos	✓	✓	✓	✓		
Criança						
Idade compreendida entre os 8-20 anos	✓	✓	✓		✓	
Pais (mãe ou pai)						
De uma criança entre os 8-20 anos			✓		✓	
Estar numa relação amorosa há \geq 1 ano					✓	
Mãe						
De uma criança entre os 8-20 anos						✓
De uma criança entre os 1-20 anos				✓		
Critérios de exclusão						
Atraso desenvolvimental (p. ex. síndrome Down)	X	X	X	X	X	X
Comorbilidade com outra condição crónica de saúde (p. ex. diabetes)	X	X	X	X	X	X
Estar a receber cuidados paliativos	X	X	X	X	X	X

Após obter informação, por parte de cada um dos elos de ligação dos três Hospitais, sobre quais as famílias que cumpriam os critérios, os potenciais participantes foram contactados de forma presencial, pela equipa de investigadores¹⁴. Durante esse contacto inicial, o investigador informou os potenciais participantes que o principal objetivo deste estudo consistia em “compreender quais os fatores associados ao bem-estar de famílias de crianças com cancro nas fases de tratamento e de pós-tratamento”, do papel dos participantes (participação numa entrevista e/ou preenchimento de questionários de autorresposta), do desenho do estudo (um ou dois momentos de avaliação), das condições de participação (participação na Unidade de Oncologia Pediátrica, sem necessidade de deslocações adicionais e sem encargos financeiros), da inexistência de riscos e dos benefícios associados à participação, bem como do papel dos investigadores (p. ex. garantia do

¹⁴ No ano letivo de 2012/2013, contámos com o apoio de duas alunas de mestrado para a recolha de amostra no Serviço de Oncologia Pediátrica do Hospital Pediátrico de Coimbra, CHUC, EPE.

anonimato e da confidencialidade, dados analisados exclusivamente para fins de investigação). Além disso, foi especificado que a eventual não-participação não teria qualquer consequência ao nível do atendimento multidisciplinar que a família usufruía naquele Hospital, realçando o carácter voluntário da participação no estudo.

Especificamente em relação ao estudo qualitativo, depois dos participantes assinarem o consentimento informado (ANEXO B1) foram fornecidas instruções de preenchimento de uma ficha de dados sociodemográficos e clínicos. As entrevistas foram realizadas pela investigadora num gabinete da Unidade de Oncologia Pediátrica. Com a autorização dos participantes, 19 entrevistas¹⁵ foram realizadas e gravadas integralmente em registo áudio. No final das entrevistas, os participantes foram questionados se estariam disponíveis para participar no(s) estudo(s) quantitativo(s).

Relativamente aos estudos que utilizaram a abordagem quantitativa, após obtenção do consentimento informado (ANEXO B2) por parte de todos os pais e crianças com idade \geq a 13 anos e do assentimento informado por parte das crianças entre os 8 e os 12 anos, foram fornecidas instruções para o preenchimento do protocolo de avaliação (p. ex. inexistência de respostas certas ou erradas). Os participantes preencheram os questionários de auto-relato em formato papel e caneta, num gabinete da Unidade de Oncologia Pediátrica na presença do investigador que estava disponível para o esclarecimento de qualquer dúvida existente e para assegurar o preenchimento independente por parte de ambos os elementos da família. Finalmente, para o estudo quantitativo longitudinal as crianças que estavam a ser submetidas a um protocolo terapêutico com duração prevista de \geq de 9 meses, aquando do momento 1 (M1) foram novamente contactadas para participar no segundo momento de avaliação (M2). Os procedimentos adotados neste M2 foram semelhantes ao do M1, sendo apenas de destacar uma diminuição do número de questionários que constituíram o protocolo de avaliação.

3.2.2. Participantes

De um total de 450 famílias contactadas, 448 aceitaram participar no estudo, mais especificamente 389 díades de crianças/pais e 59 pais de crianças com idade inferior a 8 anos. Refira-se que os números da amostra apresentados nesta secção correspondem à amostra total recolhida; assim para os diferentes estudos empíricos, a amostra utilizada¹⁶

¹⁵ Na realidade foram realizadas entrevistas a dois elementos da família (i.e., à mãe e à criança diagnosticada com cancro) em dois momentos (o primeiro momento decorreu entre o 1º e o 4º mês após o diagnóstico, já o segundo momento ocorreu um ano após o diagnóstico), perfazendo um total de 76 entrevistas. Contudo, uma vez que para o presente trabalho apenas as entrevistas das mães referentes ao primeiro momento foram objeto de análise, não incluímos esta informação no desenho da investigação e secções relativas aos participantes e procedimentos de recolha da amostra, por uma questão de organização do texto.

¹⁶ Participaram no **Estudo I** 129 crianças (período de recolha da amostra decorreu entre junho de 2012 e janeiro de 2013), no **Estudo II** 332 crianças (período de recolha da amostra decorreu entre junho de 2012 e setembro de 2013), no **Estudo III** 389 díades de crianças/pais (período de recolha da amostra decorreu entre junho de 2012 e fevereiro de 2014), no **Estudo IV** 244 mães (período de recolha da amostra decorreu entre janeiro de 2013 e fevereiro de 2014), no **Estudo V** 58 díades de crianças/pais (período de recolha da amostra decorreu entre junho de 2012 e dezembro de 2013) e no **Estudo VI** 19 mães (período de recolha da amostra decorreu entre junho de 2012 e setembro de 2013).

variou em função dos objetivos dos estudos, das variáveis, dos momentos de avaliação considerados, do período de recolha da amostra e dos critérios de inclusão.

A Figura 3 apresenta o número de participantes nos diferentes momentos de avaliação. Todas as mães aceitaram participar no estudo qualitativo. Relativamente aos estudos que utilizaram o método quantitativo, a taxa de participação foi de 99.56 %. Falta de interesse no estudo ou de tempo foram as razões apontadas para a não participação de duas díades de crianças/pais. Especificamente em relação ao M2, sete díades de crianças/pais não foram contactadas, na medida em que a criança faleceu ($n = 6$) ou se verificou uma mudança clinicamente significativa entre os dois momentos ($n = 1$). A figura representa ainda o número de participantes que colaboraram nos vários estudos e respetivas fases.

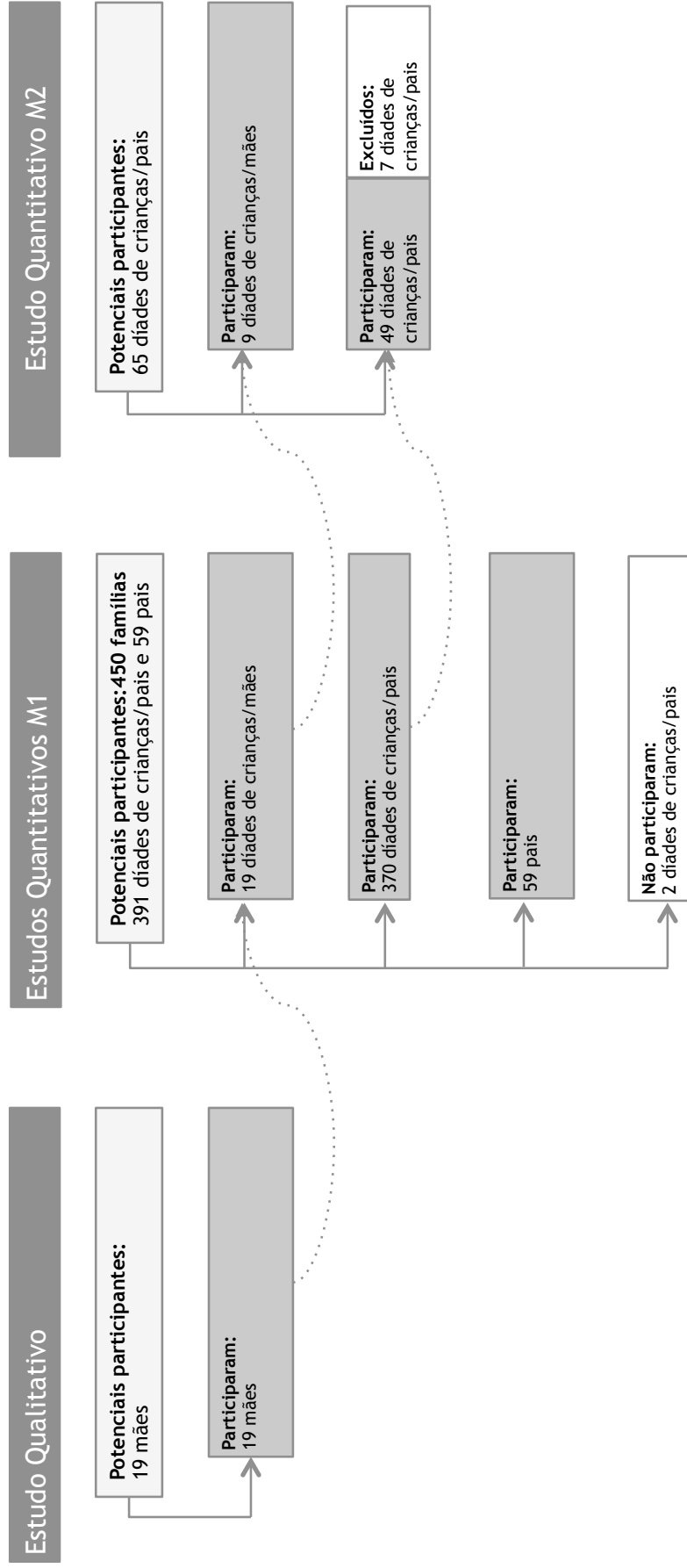


Figura 3 | Representação esquemática da participação de crianças e pais

3.3. Métodos de recolha de informação

Para cumprir os objetivos da investigação, e considerando a importância de uma avaliação compreensiva da adaptação individual e do funcionamento familiar, assente numa abordagem socioecológica da adaptação (Kazak, 1989), optámos por uma metodologia mista. No Quadro 3, apresentamos para cada estudo, as variáveis/temas-chave, os métodos de recolha de informação utilizado (ficha de dados, questionários ou entrevista), os informantes e os momentos de avaliação.

Quadro 3 | Variáveis/Temas-chave e métodos de recolha de informação por estudo

Variáveis/Temas-chave	Métodos de recolha de informação	Informantes			Momentos		Estudos							
		Crianças	Pais	Médicos	M1	M2	I	II	III	IV	V	VI		
Características sociodemográficas e clínicas	Ficha de dados sociodemográficos e clínicos	✓			✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓
Intensidade do tratamento	Intensity of Treatment Rating Scale [ITR 3.0]			✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓
Esperança	Adult Hope Scale [AHS]		✓		✓									
Esperança	Children Hope Scale [CHS]	✓			✓									
Vinculação amorosa	Experiences in Close Relationships-Relationship Structures Questionnaire [ECR-RS]		✓		✓									✓
Significado dos rituais familiares	Family Ritual Questionnaire [FRQ]	✓	✓		✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓
Coesão familiar	Family Environment Scale [FES]	✓	✓		✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓
Sobrecarga financeira	Impact on Family Scale [IOF]		✓		✓									✓
Sintomatologia ansiosa/depressiva	Hospital Anxiety and Depression Scale [HADS]	✓	✓		✓									✓
QdV	[EUROHIS-QoL8]		✓		✓									✓
Ansiedade	Revised Children's Manifest Anxiety Scale - Second Edition [RCMAS-2]	✓			✓									✓
QdVrs genérica	DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12]	✓	✓		✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓	✓
QdVrs específica	Pediatric Quality of Life Inventory Cancer Module [PedsQL™ 3.0 Cancer Module]	✓			✓									✓
Rituais familiares (identificação, significado, historicidade)	Entrevista semiestruturada		✓		✓									✓
Vivência do cancro pediátrico														

Variáveis

Temas-Chave

3.3.1. Ficha de dados

A ficha de dados sociodemográficos e clínicos foi construída para o presente estudo e encontra-se disponível para consulta no Anexo C.

3.3.1.1. Características sociodemográficas e clínicas

A ficha de dados sociodemográficos e clínicos foi composta por duas partes. A primeira parte da ficha, referente aos dados sociodemográficos, inquiria sobre um conjunto de questões acerca da idade e do sexo dos pais e dos filhos, da escolaridade, da profissão e da situação profissional de ambos os pais e da composição do agregado familiar.

Os dados relativos à situação profissional e ao nível socioeconómico da família foram codificados pelos investigadores. Especificamente, a situação profissional foi categorizada como não-ativa em situações desemprego, reforma ou baixa. O nível socioeconómico da família foi classificado em três níveis, desde o nível 1 (*baixo*) ao nível 3 (*elevado*), considerando a informação facultada referente à escolaridade e à profissão de ambos os pais¹⁷, de acordo com a proposta elaborada por Simões (1994).

A segunda parte da ficha, relativa aos dados clínicos, incluía perguntas acerca da data do diagnóstico (primário), do número de vezes/dias em que a criança ficou internada. Além disso, foi solicitado aos participantes para responderem a duas questões destinadas a avaliar a perceção subjetiva dos pais relativa à doença, mais especificamente, sobre a gravidade da doença e sobre a interferência da doença na vida da criança, variáveis que foram objeto de análise no estudo de Salvador, Crespo, Martins, Santos e Canavarro (2014). Outras informações clínicas, mais específicas, como o tipo de diagnóstico, a fase do cancro pediátrico, a data do diagnóstico ou a data do final do protocolo terapêutico, foram fornecidas pelo médico oncologista pediátrico.

3.3.2. Questionários

A seleção dos instrumentos de avaliação que possibilitem uma análise adequada das variáveis em estudo constituiu-se como uma preocupação dos investigadores. Optámos pela seleção de doze instrumentos, dez dos quais já se encontravam traduzidos, adaptados e validados para a população portuguesa. Dada a inexistência das versões Portuguesas do *Pediatric Quality of Life Inventory Cancer Module* (PedsQL™ 3.0 Cancer Module; Varni et al., 2002) e do ITR 3.0 (Kazak et al., 2012), foi objetivo do **Estudo I e II** proceder ao processo de tradução e adaptação das escalas, bem como estudar as suas características psicométricas numa amostra da população portuguesa nas fases de tratamento e de pós-tratamento.

¹⁷ Expeto em situações de separação/divórcio, sempre que o outro progenitor não contribuía com a pensão de alimentos. Nesses casos o nível socioeconómico foi categorizado com base na informação de apenas um dos progenitores.

Os questionários foram selecionados tendo em consideração a sua adequação para avaliar as variáveis em estudo, bem como a sua robustez psicométrica, facilidade e brevidade de aplicação.

O protocolo de avaliação dos pais e das crianças incluiu vários instrumentos de avaliação que procuraram estudar fatores individuais e familiares e indicadores de adaptação. Relativamente aos indicadores de adaptação, além da sintomatologia ansiosa/depressiva, optámos, igualmente, pelo estudo da QdV/QdVrS, um indicador positivo e multidimensional da adaptação. Especificamente em relação ao protocolo das crianças, seleccionámos instrumentos com uma linguagem e escala de resposta apropriadas à capacidade cognitiva das crianças (Davis et al., 2006; Wallander, Schmitt, & Koot, 2001). Além disso, privilegiámos questionários com domínios relevantes para a faixa etária em questão e específicos para a área da oncologia pediátrica, como o questionário PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* (Varni et al., 2002). Adicionalmente, e sempre que possível optámos pelas versões reduzidas dos instrumentos. Por exemplo, para avaliar a QdV, a QdVrS (genérica) e a ansiedade optámos pelas versões reduzidas do EUROHIS-QOL8, do *Revised Children's Manifest Anxiety Scale - Second Edition* (RCMAS-2) e do *DISABKIDS Chronic Generic Measure* (DCGM-12).

O protocolo de avaliação dos médicos oncologistas pediátricos incluiu uma escala para avaliar a intensidade do tratamento e algumas questões específicas sobre a doença e o protocolo terapêutico.

De seguida, será apresentada uma breve descrição dos questionários utilizados para avaliar as variáveis em estudo e as suas características psicométricas. Dados mais específicos relativos às características psicométricas dos instrumentos na presente amostra serão apresentados nos artigos que compõem o Capítulo seguinte, uma vez que diferentes recortes da amostra foram utilizados nos vários estudos.

3.3.2.1. Intensidade do tratamento (Médicos)

A intensidade do tratamento foi avaliada através da versão portuguesa do *Intensity of Treatment Rating Scale* (ITR 3.0; Kazak et al., 2012; versão Portuguesa: Santos, Crespo, Canavarro, & Pinto, 2014). Com base nos dados médicos extraídos previamente dos processos clínicos, 20 médicos oncologistas pediátricos classificaram o tratamento em 4 níveis de intensidade, desde nível 1 (*tratamentos menos intensivos*) ao nível 4 (*tratamentos de máxima intensidade*), com base no tipo de diagnóstico, história de recidiva, estágio ou nível de risco e modalidade(s) de tratamento. No estudo original (Kazak et al., 2012) a fiabilidade interavaliadores apresentou um valor *Kendall's Tau-b* de .90. O estudo psicométrico da versão Portuguesa será apresentado na Secção I do Capítulo III.

3.3.2.2. Esperança (Pais)

A esperança foi avaliada através de duas escalas. A esperança dos pais foi avaliada através da versão portuguesa da *Adult Hope Scale* (AHS; Snyder, Irving, & Anderson, 1991; versão Portuguesa: Pais Ribeiro, Pedro, & Marques, 2006). A AHS é composta por oito itens que avaliam a esperança (p. ex. “Qualquer problema tem muitas soluções”, “Persigo os meus objetivos com muita energia”) e por quatro itens falsos. Cada item é respondido numa escala tipo Likert que varia entre 1 (*totalmente falso*) e 8 (*totalmente verdade*). A pontuação total é calculada através do somatório dos oito itens, que varia entre 8 e 64, sendo que valores mais elevados correspondem a níveis mais elevados de esperança. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas. Os estudos com a versão original indicaram valores de alfa de Cronbach entre .74 e .84, dependendo da amostra (Snyder, Harris, et al., 1991). Os resultados dos estudos psicométricos Portugueses revelaram valores de alfa de Cronbach de .86 (Pais Ribeiro et al., 2006).

3.3.2.3. Esperança (Crianças)

A esperança das crianças foi avaliada através da versão portuguesa da *Children Hope Scale* (CHS; Snyder et al., 1997; versão Portuguesa: Marques, Pais-Ribeiro, & Lopez, 2009). A CHS foi desenvolvida para avaliar pensamentos de esperança relacionados com objetivos, de crianças entre os 8 e os 16 anos. Esta escala é constituída por seis itens (p. ex. “Em situações em que os outros desistem, eu sei que consigo encontrar maneiras de resolver um problema”, “Acho que as coisas que fiz no passado vão ajudar-me no futuro”) que são respondidos numa escala tipo Likert que varia entre 1 (*nenhuma das vezes*) e 6 (*todas as vezes*). A pontuação varia entre 6 e 36, sendo que valores mais elevados correspondem a níveis mais elevados de esperança. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas. Na versão original foram encontrados valores de alfa de Cronbach para as várias amostras que variaram entre .72 e .86 (Snyder et al., 1997). A versão portuguesa da escala demonstrou valores de alfa de Cronbach de .81 (Marques et al., 2009).

3.3.2.4. Vinculação amorosa (Pais)

A vinculação amorosa foi avaliada através do *Experiences in Close Relationships-Relationship Structures Questionnaire* (ECR-RS; Fraley, Heffernan, Vicary, & Brumbaugh, 2011; versão Portuguesa: Moreira, Martins, Gouveia, & Canavarro, 2015). O ECR-RS é um questionário constituído por nove itens, dos quais seis itens avaliam dimensões de evitamento (p. ex. “Ajuda-me poder contar com esta pessoa em situações de necessidade”) e três itens dimensões de ansiedade (p. ex. “Preocupo-me frequentemente que esta pessoa não goste realmente de mim”) relativamente à figura materna, à figura paterna, ao melhor amigo e ao parceiro romântico. No presente estudo foi solicitado aos pais que respondessem aos nove itens relativos ao parceiro romântico, utilizando uma escala de resposta que varia de 1

(*discordo fortemente*) a 7 (*concordo fortemente*). No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, entre 1 e 7, depois de inverter os quatro itens formulados de forma inversa. Pontuações superiores são indicadores de níveis mais elevados de ansiedade ou de evitamento na vinculação amorosa.

Na versão original foram observados valores de alfa de Cronbach que variaram entre .81 (na dimensão evitamento) e .83 (na dimensão ansiedade) para a vinculação amorosa (Fraleley et al., 2011). Os valores de alfa de Cronbach da versão portuguesa (Moreira et al., 2015) referentes à vinculação amorosa oscilaram entre .72 (na dimensão evitamento) e .91 (na dimensão ansiedade).

3.3.2.5. *Significado dos rituais familiares (Pais e crianças)*

O significado dos rituais familiares foi avaliado através do *Family Ritual Questionnaire* (FRQ; Fiese & Kline, 1993; versão Portuguesa: Crespo et al., 2008). Dos sete contextos que o instrumento avalia, selecionámos três contextos familiares (i.e., hora de jantar, fins de semana e comemorações anuais). Cada contexto é composto por cinco itens (um de cada componente: ocorrência, presença/participação, afeto, significado simbólico e preparação/intencionalidade). Num formato distinto da versão original, a versão portuguesa (Crespo et al., 2008) é constituída por uma escala de resposta que envolve dois passos. Num primeiro momento é solicitado aos participantes para escolherem, de entre duas, a afirmação que mais se parece com o que tipicamente ocorre na sua família (p. ex. “Algumas famílias raramente passam os fins de semana juntos” vs. “Outras famílias passam os fins de semana juntas regularmente”). Em seguida, é solicitado aos participantes para indicarem se a afirmação selecionada é (“Totalmente verdade” vs. “Mais ou menos verdade”) na sua família. Este formato possibilita que as respostas possam variar de 1 (p. ex. “Algumas famílias a hora de jantar é apenas uma altura para se comer”, “Totalmente verdade”) a 4 (p. ex. “Em outras famílias a hora do jantar é mais do que uma simples refeição; tem um significado especial”, “Totalmente verdade”), na qual valores mais elevados indicam níveis mais elevados de significado dos rituais familiares. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas nos três contextos, entre 1 e 4. Considerando os três contextos em questão (hora de jantar, fim de semana e comemorações anuais), no estudo da versão original da escala (Fiese & Kline, 1993) foram observados valores de alfa de Cronbach que oscilaram entre .73 (comemorações anuais) e .84 (hora de jantar). A versão portuguesa da escala (Crespo et al., 2008) demonstrou valores de alfa de Cronbach entre .88 (mães) e .91 (pais). Estudos conduzidos numa amostra de crianças, no contexto das condições crónicas de saúde, verificaram valores de alfa de Cronbach de .71 (p. ex. Santos et al., 2012).

3.3.2.6. *Coesão familiar (Pais e crianças)*

Para avaliar a coesão familiar foi utilizada uma das subescalas da dimensão Relação, da versão portuguesa da *Family Environment Scale* (FES; Moos & Moos, 1986; versão

Portuguesa: Matos & Fontaine, 1992). Esta subescala avalia o grau de envolvimento, de ajuda e apoio que os diferentes elementos da família prestam uns aos outros (Moos & Moos, 1986), através de nove itens (p. ex. “Na minha família ajudamo-nos uns aos outros”, “Gostamos de fazer coisas em família”), respondidos numa escala tipo Likert de 6 pontos, que varia de 1 (*discordo totalmente*) a 6 (*concordo totalmente*). No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, entre 1 e 6, depois de inverter os três itens formulados na negativa. Pontuações superiores são indicadores de níveis mais elevados de coesão familiar. O estudo da versão original da escala apresentou um valor de alfa de Cronbach de .78 (Moos & Moos, 1986). O estudo da versão portuguesa encontrou valores de alfa de Cronbach de .87 para adultos (Matos & Fontaine, 1992) e de .69 para crianças (Santos & Fontaine, 1995). Um estudo realizado com uma amostra de crianças com condições crónicas de saúde, encontrou um valor de alfa de Cronbach de .87 (Santos et al., 2012).

3.3.2.7. *Sobrecarga financeira (Pais)*

Para avaliar a sobrecarga financeira foi utilizada uma das dimensões da versão portuguesa da *Impact on Family Scale* (IOF; Stein & Riessman, 1980; versão Portuguesa: Albuquerque, Fonseca, Pereira, Nazaré, & Canavarro, 2011). Esta dimensão avalia a sobrecarga financeira dos pais associada à prestação de cuidados a uma criança com uma condição crónica (i.e., cancro pediátrico) através de quatro itens (p. ex. “O problema de saúde do meu filho está a causar dificuldades financeiras à família”, “Por causa das consultas médicas do meu filho, perde-se tempo de trabalho”), que são respondidos numa escala tipo Likert que varia entre 1 (*concordo muito*) e 4 (*discordo muito*). A pontuação total é calculada através do somatório dos 4 itens. Pontuações superiores são indicadoras de perceção de maior sobrecarga financeira associada ao cancro pediátrico. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, entre 1 e 4. O estudo da versão original da escala indicou um valor de alfa de Cronbach de .72 para a sobrecarga financeira (Stein & Riessman, 1980). Os resultados obtidos no estudo de validação da versão portuguesa indicaram um valor de alfa de Cronbach de .91 (Albuquerque et al., 2011).

3.3.2.8. *Sintomatologia psicopatológica (Pais)*

A sintomatologia ansiosa e depressiva dos pais foi avaliada através da versão portuguesa da *Hospital Anxiety and Depression Scale* (HADS; Zigmond & Snaith, 1983; versão Portuguesa: Pais-Ribeiro et al., 2007). A HADS é constituída por sete itens que avaliam a sintomatologia ansiosa (p. ex. “Sinto-me tenso/a ou nervoso/a”) e sete itens que avaliam a sintomatologia depressiva (p. ex. “Perdi o interesse em cuidar do meu aspeto físico”). Cada item está formulado para uma escala de resposta de tipo Likert de 4-pontos, que varia de 0 (p. ex. *quase sempre*) a 3 (p. ex. *nunca*), tendo como referencial temporal a última semana. Após a inversão de 8-itens formulados na negativa, a pontuação total para cada subescala

varia entre 0 e 21, com pontuações mais elevadas a serem indicadoras de níveis superiores de sintomatologia depressiva e/ou ansiosa. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, que variaram entre 0 e 3 para cada subescala. Uma revisão sobre as características psicométricas encontradas em vários estudos internacionais elaborada por Bjelland, Dahl, Haug e Neckelmann (2002) revelou valores de alfa entre .68 e .93 para a sintomatologia ansiosa e de .67 e .90 para a sintomatologia depressiva. A versão portuguesa da escala apresentou uma estrutura fatorial sobreponível à original (Zigmond & Snaith, 1983) e valores de alfa de Cronbach de .76 para a sintomatologia ansiosa e de .81 para a sintomatologia depressiva (Pais-Ribeiro et al., 2007).

3.3.2.9. QdV (Pais)

A QdV dos pais foi avaliada através do índice de qualidade de vida EUROHIS-QOL8 (EUROHIS-QOL8; Power, 2003; versão Portuguesa: Pereira et al., 2011). O EUROHIS-QOL 8 é uma versão abreviada do instrumento genérico de QdV WHOQOL-Bref (WHOQOL Group, 1998), originalmente composto por 26-itens organizados em quatro domínios específicos (físico, psicológico, relações sociais e ambiente). O EUROHIS-QOL 8 é composto por oito itens, em que cada domínio do WHOQOL-Bref se encontra representado por dois itens. Cada item (p. ex. “Como avalia a sua vida?”, “Tem energia suficiente para a sua vida diária?”) está formulado para uma escala de resposta de tipo Likert de 5-pontos, que varia de 1 (p. ex. *muito má*) e 5 (p. ex. *muito boa*), tendo como referencial temporal as últimas duas semanas. O resultado corresponde a um índice global da QdV, calculado a partir do somatório dos oito itens que compõem o instrumento, em que pontuações mais elevadas são indicadoras de uma melhor perceção de QdV. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, entre 1 e 5. Os resultados do estudo psicométrico transcultural da escala indicaram valores de alfa de Cronbach de .83 (Schmidt, Mühlán, & Power, 2006). A versão portuguesa da escala revelou valores de alfa de Cronbach de .83 (Pereira et al., 2011).

3.3.2.10. Ansiedade (Crianças)

A ansiedade das crianças foi medida através da versão reduzida de dez itens do *Revised Children's Manifest Anxiety Scale - Second Edition* (RCMAS-2; Reynolds & Richmond, 2008; versão Portuguesa: Fonseca, 1992). O RCMAS-2 é um questionário de autorresposta, que foi desenhado para avaliar a ansiedade de crianças entre os 6 e os 19 anos de idade. A versão reduzida de dez itens oferece um índice global da ansiedade, que inclui itens que avaliam a ansiedade fisiológica (p. ex. “Às vezes acordo assustado”), preocupação (p. ex. “Sou nervoso”) e a ansiedade social (p. ex. “Tenho medo que outras pessoas se riam de mim”), respondidos numa escala de formato dicotómico de 0 (*não*) a 1 (*sim*). A pontuação total varia entre 0 e 10, com pontuações mais elevadas a serem indicadoras de níveis superiores de ansiedade. No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas,

entre 0 e 1. Os resultados dos estudos psicométricos da versão reduzida revelaram valores de alfa de Cronbach de .82 (Reynolds & Richmond, 2008). Os resultados dos estudos psicométricos nacionais revelaram valores de alfa de Cronbach entre .78 (Fonseca, 1992) e .83 (Dias & Gonçalves, 1999).

3.3.2.11. QdVrS genérica (Crianças)

A QdVrS (genérica) foi avaliada através da versão portuguesa *DISABKIDS Chronic Generic Measure* (DCGM-12; European DISABKIDS Group, 2006; versão Portuguesa: Carona, Silva, Moreira, Canavarro, & Bullinger, 2015). O DCGM-12 é uma versão abreviada do DCGM-37, construído para avaliar a QdVrS de crianças com uma condição crónica de saúde, entre os 8 e os 16 anos de idade. Este instrumento é composto por 12 itens (p. ex. “O teu problema de saúde deixa-te triste?”, “A tua vida é dominada pelo teu problema de saúde?”) que são respondidos numa escala tipo Likert que varia entre 1 (*nunca*) e 5 (*sempre*), tendo como referência temporal as últimas quatro semanas.

Seguindo recomendações recentes (Muehlan, 2010), a versão Portuguesa não incluiu os 2-itens relativos à medicação. A pontuação total variou entre 1 e 10, com pontuações mais elevadas a serem indicadoras de melhor perceção de QdVrS (genérica). No presente estudo, a pontuação final resulta da média das pontuações obtidas, entre 1 e 5. O estudo original da versão reduzida revelou um valor de alfa de Cronbach de .84 (European DISABKIDS Group, 2006). A versão portuguesa da escala encontrou um valor de alfa de Cronbach de .83 (Carona et al., 2015).

3.3.2.12. QdVrS específica (Crianças)

A QdVrS (específica) das crianças foi avaliada através da versão portuguesa do *Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module* (PedsQL™ 3.0 Cancer Module; Varni et al., 2002; versão Portuguesa: Santos et al., 2016). O PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* é uma versão atualizada do PedsQL™ 1.0 *Cancer Module* (Varni, Seid, & Rode, 1999) que avalia a perceção da QdVrS (específica) de crianças com cancro nas fases de tratamento e de pós-tratamento (Varni et al., 2002). O PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* disponibiliza várias versões. A versão de auto-relato, direcionada para crianças entre os 8-12 anos e entre os 13-18 anos¹⁸, é composta por 27 itens distribuídos por oito subescalas: dor (2-itens; p. ex. “Tenho dores nas articulações e/ou músculos”), náusea (5-itens; p. ex. “Fico enjoado quando tenho tratamentos médicos”), ansiedade nos procedimentos (3-itens; p. ex. “Fico com medo quando tenho de tirar sangue”), ansiedade nos tratamentos (3-itens; p. ex. “Fico com medo quando estou à espera do médico”), preocupação (3-itens; p. ex. “Preocupo-me com os efeitos secundários dos tratamentos médicos”), problemas cognitivos (5-itens; p. ex. “Tenho dificuldade em saber o que fazer quando alguma coisa me incomoda”), perceção da aparência

¹⁸ Estas versões apenas diferem nos termos (criança vs. jovens) utilizados nas instruções.

física (3-itens; p. ex. “Sinto que não sou bonito”) e comunicação (3-itens; p. ex. “Tenho dificuldade em dizer aos médicos e enfermeiros o que sinto”), que são respondidos numa escala tipo Likert que varia entre 0 (*nunca*) e 4 (*quase sempre*), tendo como referência o último mês. Seguindo as recomendações originais, os resultados foram transformados numa escala de 0 a 100. Pontuações mais elevadas indicam uma melhor perceção de qualidade de vida. O estudo original da escala encontrou um valor de alfa de Cronbach de .72 (Varni et al., 2002). Como este instrumento não estava adaptado para a população portuguesa, procedemos à sua tradução e adaptação. O estudo psicométrico da versão Portuguesa é apresentado na secção II, do capítulo seguinte. O PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* apresenta uma versão de hetero-relato para pais de crianças (8-12 e 13-18 anos), tendo sido objeto de análise no artigo de Batalha et al. (2016).

3.3.3. Entrevista semiestruturada

A entrevista semiestruturada pode-se conceitualizar como uma conversa orientada/guiada (Loftand & Loftland, 1984), especialmente indicada quando se pretende compreender uma realidade ainda pouco estudada (Stern, 1980), na medida em que permite aceder as perceções e significados não espartilhados por questionários previamente definidos. Este tipo de entrevista permite que o entrevistador mantenha um nível de orientação/estruturação, mas ao mesmo tempo confere a liberdade necessária para o entrevistado se sentir impelido a narrar uma determinada história (Beer, 1992; Daly, 2007)

A utilização deste método de recolha de informação teve subjacente um conjunto de tarefas que procuraremos especificar de seguida.

Com o intuito de operacionalizar a conversa orientada, foi construído um guião da entrevista (Anexo D) de acordo com os objetivos da investigação e com os princípios base propostos pela literatura sobre investigação qualitativa. Com base nesse guião foram realizadas duas entrevistas piloto com uma mãe e uma criança (ambas da mesma família) que cumpriam os critérios de inclusão, com o objetivo de verificar se o guião era adequado (p. ex. pertinência das questões, duração).

Após a realização das entrevistas piloto, considerou-se que seria importante eliminar algumas questões mais específicas relacionadas com o grau de satisfação dos rituais familiares, reservando o uso das mesmas para entrevistas em que esse tema não emergisse espontaneamente e aperfeiçoar a introdução ao conceito “rituais familiares”, no sentido em que seria importante que os próprios participantes pudessem avaliar o que considerariam como rituais familiares; note-se que uma das características dos rituais familiares é a sua idiosincrasia (Wolin & Bennett, 1984).

Incorporadas as alterações, a primeira parte do guião da entrevista, cujo objetivo era explorar a vivência dos rituais familiares na fase inicial de tratamento foi estruturada nos seguintes temas: 1.1) Definição/avaliação da família (i.e., símbolo); 1.2) Identificação dos

rituais familiares; 1.3) Significado dos rituais familiares; 1.4) Historicidade e projeção no futuro dos rituais familiares. A segunda parte, cujo objetivo era explorar a vivência do cancro pediátrico, incluiu os seguintes temas: 2.1) Avaliação do impacto do cancro pediátrico; 2.2) Perceção sobre a adesão ao tratamento; 2.3) Perceção sobre a relação entre os rituais familiares e a adesão ao tratamento. Relativamente à introdução do conceito de rituais familiares optámos pela seguinte descrição: “rituais familiares são momentos especiais, em que a família está reunida e que atribui um significado especial a esses momentos. Estes momentos podem ocorrer todos os dias, uma vez por semana, ou uma vez por ano e podem incluir os membros da família nuclear e, por vezes, da família alargada. Alguns exemplos são os casamentos, os aniversários, o natal, a páscoa, as férias ou ocasiões mais frequentes como a hora de jantar ou o fim de semana. Consegue identificar alguns momentos, a que vocês possam chamar de rituais familiares?”

Ao longo das entrevistas, procurou-se adaptar uma postura empática e de confiança e flexível, características fundamentais para criar um contexto propício à autorrevelação. Especificamente, procurámos abordar os temas do guião, mas mantivemos a abertura necessária à emergência de novos temas, tal como é sugerido pela *Grounded Theory* (Strauss & Corbin, 1998). Além disso, durante a entrevista realizámos uma escuta atenta e ativa, que garante disponibilidade suficiente para descodificar significados e ao mesmo tempo, disponibilidade para preparar outras questões decorrentes do discurso dos participantes (Chase, 2003).

Devido ao volume e extensão da informação dos dados qualitativos, não foi possível analisar os dados da segunda parte da entrevista, tendo-nos centrado nos tópicos da primeira parte das entrevistas das mães.

3.3.3.1. *Rituais Familiares (Pais)*

Para explorar as perceções e significações maternas (Denzin & Lincoln, 2005) acerca da vivência dos rituais familiares no contexto do cancro pediátrico conduzimos 19 entrevistas semiestruturadas, com questões amplas e abertas (p. ex. “Que rituais familiares consegue identificar na sua família?; “Desde o diagnóstico como é que tem sido a vivência dos vossos rituais familiares?), que permitissem dar lugar a respostas livres e aprofundadas.

3.4. **Análise de dados**

A análise de dados é uma componente muito importante no processo de investigação, já que é nesta etapa do processo que se examinam os dados recolhidos, por forma dar resposta às questões de investigação. Assim, a análise de dados nesta investigação resultou de um conjunto de tomadas de decisão em função dos objetivos dos estudos, das hipóteses colocadas, dos métodos utilizado (quantitativo vs. qualitativo) e da sua natureza (transversal vs. longitudinal).

3.4.1. Análise quantitativa dos dados

Cada estudo (**Estudo I, II, III, IV e V**) identifica, em sua própria secção, o *software* e as análises utilizadas para responder a cada um dos objetivos específicos. Assim, de seguida, apresentamos alguns aspetos transversais sobre a análise estatística dos dados.

3.4.1.1. A criança-pais como unidade de análise (análises diádicas)

“Two members of a dyad are not simply two independent individuals. Rather, they share something in common that we refer to as non-independence” (Kenny et al., 2006, p. 4), o reconhecimento da não-interdependência dos dois elementos da família teve implicações no presente projeto de investigação, quer do ponto de vista conceptual, quer do ponto de vista metodológico e estatístico.

As díades de crianças/pais da amostra estão ligadas por laços de parentesco e compartilham fatores de influência. Dessa forma, a base de dados foi construída de modo a que cada díade de criança/pais fosse um sujeito de análise (p. ex. nível socioeconómico, tempo desde o diagnóstico, fase do cancro pediátrico) e a pontuação de cada um dos elementos da díade constituísse uma variável (Kenny et al., 2006). Em segundo lugar, quando nos centramos na análise dos *efeitos do parceiro* na adaptação individual (**Estudo III**) e familiar (**Estudo V**). Para tal baseámo-nos no modelo *Actor-Partner Interdependence Model* (Cook & Kenny, 2005). Cook e Kenny (2005) propõem determinadas análises estatísticas para analisar dados diádicos de acordo com a complexidade que lhes é inerente, entre as quais se destacam as análises de regressão linear múltipla e as análises de modelo de equações estruturais, utilizadas respetivamente no **Estudo V** e no **Estudo III**.

No **Estudo V** recorreremos as análises de regressão linear múltipla para examinar de que forma é que a perceção do funcionamento familiar das crianças (p. ex. coesão familiar M2) era influenciada pela perceção prévia destas –aproximadamente três meses após o diagnóstico– (p. ex. coesão familiar M1; *efeitos do ator*) e pela vinculação amorosa dos pais (vinculação evitante/ansiosa M1; *efeitos do parceiro*).

No **Estudo III** recorreremos as análises de modelo de equações estruturais para testar os efeitos diretos e indiretos entre a perceção do funcionamento familiar dos pais e das crianças (i.e., significado dos rituais familiares) e a adaptação individual (i.e., QdV/QdVrS), a nível individual (efeitos do ator), mas também a nível diádico (*efeitos do parceiro*). Neste caso, para além dos *efeitos do ator* e *do parceiro*, também foram consideradas as correlações entre variáveis independentes (de modo a que os *efeitos do ator* fossem estimados, enquanto se controlavam os *efeitos do parceiro* e vice-versa) e as correlações entre as variáveis residuais. Por exemplo, este modelo permitiu-nos analisar de que forma é que o significado dos rituais familiares dos pais influenciava a QdV destes (efeitos do ator) e a QdVrS das crianças (*efeitos*

do *parceiro*), controlando o significado dos rituais familiares das crianças e a respetiva variância partilhada entre ambos os elementos da díade nesta variável.

3.4.1.2. Análises de poder estatístico

De acordo com Fisher (1925), um efeito estatístico é considerado significativo, quando o valor da probabilidade (p) da significância estatística é inferior a .05. Porém, o nível de significância depende de diversos fatores, nomeadamente do teste estatístico utilizado e do tamanho da amostra (Ellis, 2010). Assim, nos estudos com um tamanho de amostra mais pequena (p. ex. **Estudo IV** e **V**), procedemos a análises de poder estatístico a posteriori (*post hoc*), que se refere à capacidade de cada teste detetar diferenças estatisticamente significativas (pequenas, médias ou grandes) na amostra em consideração. Para tal utilizámos o programa G*Power (Faul, Erdfelder, Lang, & Buchner, 2007), considerando o valor de significância estatística igual a .05 e um poder superior a .80.

3.4.1.3. Cálculo da magnitude do efeito

Para além do poder estatístico, sempre que foi possível reportámos as medidas da magnitude do efeito (*effect size*; cf. **Estudo I, II, III, IV e V**) tal como sugerido na 6ª edição do manual da APA (2010). A apresentação da magnitude do efeito (i.e., um valor estatístico que não é influenciado pelo tamanho da amostra) apresenta diversas vantagens, sendo de destacar a avaliação da significância prática (clínica) dos resultados do estudo (Hojat & Xu, 2004). De acordo com Cohen (1992), existem várias medidas de efeito. Assim, para o qui-quadrado utilizámos Cramer's V; para o estudo das associações entre variáveis (i.e., nas análises de correlações) considerámos o coeficiente de Pearson (r); para a comparação entre grupos através da análise da variância (unifatorial) utilizámos o eta quadrado (η^2); e, por fim, para as análises de regressão múltipla hierárquica considerámos o Cohen's f^2 . Sendo que, de acordo com as *guidelines* de Cohen: os valores de Cramer's V .01, de r .10, de η^2 .01 e de Cohen's f^2 .02 são considerados como correspondendo a efeitos pequenos; os valores de Cramer's V .03, de r .30, de η^2 .06, e de Cohen's f^2 .15 são considerados como correspondendo a efeitos médios; e valores de Cramer's V .05, de r .50, de η^2 .14, e de Cohen's f^2 .35 são considerados como correspondendo a efeitos grandes. Ao longo do processo de análise dos dados quantitativos, utilizámos como suporte informático o *software* Statistical Package for the Social Sciences (SPSS, v. 21; IBM Corp. in Armonk, NY) e o Analysis of Moments Structures (AMOS, v. 21; Arbuckle, 2012).

3.4.2. Análise qualitativa dos dados

De acordo com Strauss e Corbin (1998), por análise qualitativa entende-se qualquer tipo de investigação que produza resultados não alcançáveis através de procedimentos estatísticos ou de meios de quantificação. Embora alguns dados possam ser quantificáveis, a análise é sobretudo interpretativa. A opção por esta abordagem justifica-se pela natureza do problema de investigação, sendo especialmente aconselhável para explorar áreas pouco estudadas (Bloomberg & Volpe, 2008; Stern, 1980) e para compreender os processos familiares na perspetiva dos elementos da família (Daly, 1992, 2007).

3.4.2.1. *Grounded Theory*

A *Grounded Theory*, uma abordagem à construção de teoria derivada dos dados, sistematicamente reunidos e analisados por meio de processos de pesquisa, foi a bússola selecionada para a análise dos dados (Strauss & Corbin, 1998). Este tipo de análise é sobretudo indutiva, uma vez que as reflexões emergem depois do processo de análise dos dados (Strauss & Corbin, 1998) que envolve três tipos de codificação: a codificação aberta (processo analítico através do qual os conceitos são identificados e suas propriedades e suas dimensões são descobertas dos dados), a codificação axial (processo de relacionar categorias e subcategorias, associando categorias ao nível das propriedades e dimensões) e a codificação seletiva (processo de integrar e aperfeiçoar a teoria; Strauss & Corbin, 1998).

Após a transcrição integral das entrevistas realizada pela investigadora e por alunas de Mestrado Integrado em Psicologia, definiram-se as unidades de análise com significado, sendo que no nosso estudo optámos por frases que considerámos suficientes para a formação de significado. Em seguida iniciámos o processo de codificação, sendo que o primeiro passo consistiu em fragmentar, analisar, comparar, conceptualizar e categorizar os dados. Seguidamente, e a partir das categorias encontradas no passo anterior, procurámos relações entre as categorias e a criação de novas categorias definidora das relações. Ainda que não tenhamos chegado a uma categoria central, tal como definido por Strauss e Corbin (1998), através da comparação constante (*constant comparative process*) procurámos padrões e processos com um nível de abstração superior, por forma a que os resultados finais da análise qualitativa fosse abstrações e não descrições (Glaser, 2005). De facto, a comparação constante foi imprescindível quer numa fase inicial (p. ex. desenvolver categorias, identificar diferenças), quer numa fase mais avançada (p. ex. quando tentamos perceber se os dados novos se expressaram ou não no mesmo sentido que os anteriores).

A saturação teórica (i.e., ponto no desenvolvimento da categoria em que deixam de surgir novas propriedades, dimensões ou relações; Charmaz, 2006; Strauss & Corbin, 1998) foi alcançada depois de analisar a 16ª entrevista. De salientar que a codificação foi feita pelo investigador principal, sob supervisão dos orientadores científicos e a validade dos dados foi

assegurada por um investigador externo que acompanhou todo o processo (J. W. Creswell & Miller, 2000).

Ao longo do processo de análise dos dados qualitativos, utilizámos como suporte informático o *software* QSR NVivo 10 (QSR International, 2012; Bazeley & Jackson, 2013).

4. Princípios éticos

Durante todo o processo de investigação, regemo-nos pelos princípios éticos na investigação científica em seres humanos, presentes na Declaração de Helsínquia (World Medical Association, 2000), da APA (2010), bem como as recomendações do Código Deontológico da Ordem dos Psicólogos Portugueses (OPP; 2011).

Por forma a cumprir os princípios éticos da beneficência e não-maleficência na investigação com seres humanos, na fase de desenvolvimento do projeto de investigação, refletimos acerca da relevância dos objetivos da nossa investigação, desenho metodológico e potenciais riscos e benefícios na participação. Esta reflexão conjunta (entre os elementos da equipa de investigação e com os diretores de serviço das três Unidades de Oncologia Pediátrica envolvidas) orientou as escolhas relativas aos questionários (p. ex. opção pelas versões reduzidas dos questionários, sempre que possível) e aos momentos da avaliação (apenas 1/3 meses após o diagnóstico para o primeiro momento de avaliação, por forma a que a participação no estudo não constituísse um fator de *stress* adicional) com o objetivo de salvaguardar o bem-estar dos participantes acima de qualquer outro interesse ou objetivo. Integradas as sugestões decorrentes do processo de reflexão, submetemos o projeto de investigação à consideração e aprovação das comissões de Ética de três Hospitais (dos quatro Hospitais que disponibilizam tratamento para o cancro pediátrico em Portugal), mais especificamente ao IPOFG, EPE, ao CHSJ, EPE e ao HP, CHUC, EPE tendo sido aprovado por estas.

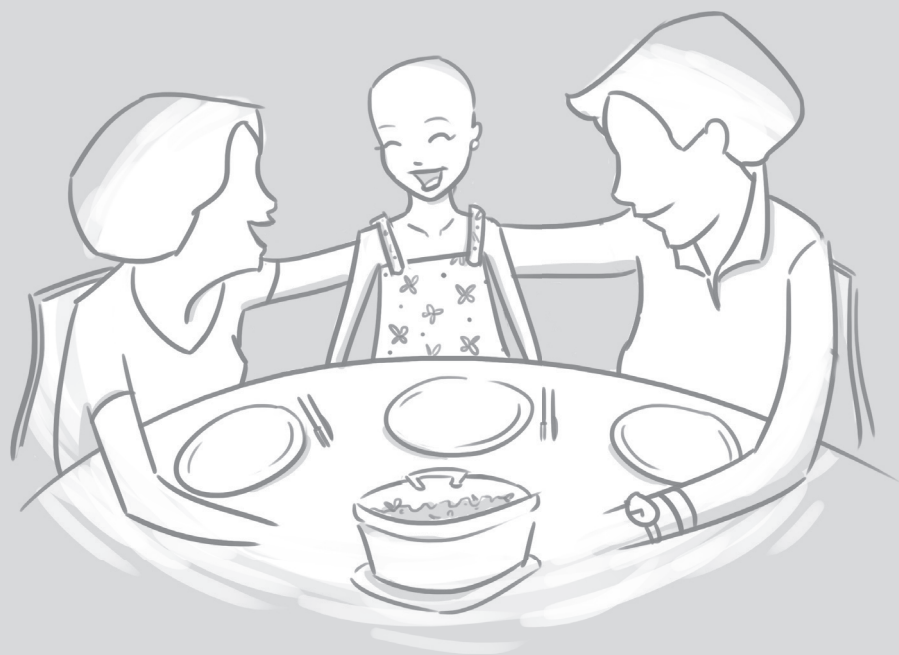
Após a aprovação do projeto de investigação, passámos à sua implementação. Durante esta fase, procurámos seguir diferentes recomendações éticas. Para além do primeiro contacto junto das famílias ser efetuado pelo elo de ligação (profissional responsável por fazer o primeiro contacto junto da família e por apresentar o investigador), foi fornecido aos participantes um conjunto de informações sobre o projeto de investigação, mais especificamente sobre os objetivos do estudo, o papel dos participantes, os procedimentos envolvidos e os riscos/benefícios à participação no estudo. Foi também assegurado aos participantes o cariz voluntário da participação, bem como a confidencialidade dos dados e o seu uso exclusivo para fins de investigação. Foram ainda disponibilizados os contactos dos investigadores e centro de investigação, para que os potenciais participantes pudessem tomar uma decisão informada. Estas informações estavam descritas no formulário de consentimento/assentimento informado, que foi lido e explicado oralmente, de modo a que qualquer dúvida que surgisse fosse imediatamente esclarecida pelo investigador. A todos os

indivíduos que aceitaram participar no projeto de investigação, foi-lhes solicitado que assinassem o consentimento informado (pais e crianças com idade \geq a 13 anos) ou que dessem o seu assentimento informado (crianças entre os 8 e os 12 anos). Durante a implementação do projeto de investigação adotámos algumas medidas para garantir a confidencialidade e anonimato dos dados recolhidos, nomeadamente: 1) utilizar um gabinete da Unidade de Oncologia Pediátrica durante o preenchimento do questionário/participação na entrevista; 2) identificar o protocolo de avaliação com um sistema de código; 3) desemparelhar o consentimento informado do protocolo de avaliação para não permitir a identificação posterior do participante, quer por pessoas externas à equipa de investigação, quer pela própria equipa de investigação; 4) recolher dados pessoais estritamente necessários à investigação; 5) inserir os dados numa base informática de dados, analisando-os exclusivamente de forma coletiva.

Por fim, na fase da divulgação dos resultados, procurámos apresentar os resultados de acordo com os parâmetros aceites internacionalmente de divulgação científica. Para além da divulgação dos resultados entre a comunidade científica (através de artigos, comunicações em formato poster/oral), após a conclusão do projeto de investigação, serão disponibilizadas informações aos participantes acerca das principais conclusões da investigação através da página web do grupo de investigação Relações, Desenvolvimento & Saúde (<http://www.fpce.uc.pt/saude/>), no qual este projeto de investigação está integrado. Por fim está prevista uma devolução da informação aos profissionais de saúde das três Unidades de Oncologia Pediátrica, onde o processo de recolha de amostra teve lugar.

CAPÍTULO III

ESTUDOS EMPÍRICOS



Capítulo III | Estudos Empíricos

Secção I | Intensidade do tratamento e QdVrS no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0

[História e contributo do Estudo I]

Este é o primeiro dos seis artigos da presente investigação e, a nosso ver, apresenta dois contributos relevantes.

Em primeiro lugar, permitiu a disponibilização, para o contexto português, do ITR 3.0 (Kazak et al., 2012; Werba et al., 2007), uma medida objetiva que classifica o protocolo terapêutico em 4 níveis de intensidade. Dada a raridade do cancro pediátrico, nos estudos psicossociais observam-se, essencialmente, dois padrões. Vários autores têm optado por realizar estudos só com crianças com um tipo de diagnóstico (p. ex. leucemia); os resultados caracterizam-se por amostras homogéneas, mas com limitações ao nível da generalização dos dados ou amostras pequenas que aumentam o risco de erros de Tipo 1. Em alternativa, outros autores têm optado por incluir qualquer tipo de diagnóstico; neste caso obtêm-se amostras grandes, ainda que à custa de uma maior dificuldade na interpretação dos resultados (Eiser, 2004). É certo que o tipo de diagnóstico é uma variável importante, mas será a única? Alguns autores têm sugerido a pertinência de considerar outras variáveis como a história de recidiva, o prognóstico (Sung et al., 2009) ou as modalidades de tratamento (Bhat et al., 2005). Considerando que o ITR 3.0 consegue cruzar todas estas variáveis clínicas (mais especificamente o tipo de diagnóstico, a história de recidiva, o estágio ou nível de risco e as modalidades de tratamento), a tradução, adaptação e o estudo psicométrico desta escala tornou-se indispensável. A opção pelo ITR-3.0 fundamentou-se nas suas vantagens. Dado que é uma medida abrangente (i.e., pode ser aplicada a todos os tipos de diagnóstico) e simultaneamente “fina” (pois permite diferenciar níveis de intensidade do tratamento dentro do mesmo tipo de diagnóstico, atendendo ao subgrupo de diagnóstico, à história de recidiva, ao estágio ou nível de risco e às modalidades de tratamento envolvidas). Além destas vantagens, este tipo de escala afigura-se como uma medida objetiva e fiável, que se distancia dos procedimentos de escolha-forçada que são mais suscetíveis à subjetividade do avaliador, na medida em que os médicos oncologistas pediatras avaliam os protocolos desde o menos intenso ao de máxima intensidade.

O segundo contributo deste estudo reside na caracterização de um indicador de adaptação individual, a QdVrS, de acordo com um fator clínico de relevo: a intensidade do tratamento. Surpreendentemente este fator multidimensional não foi ainda sistematicamente considerado nos estudos que incidiram sobre a QdVrS, sendo que os poucos resultados disponíveis nem sempre foram consistentes (cf. Barakat et al., 2010; Landolt et al., 2006). Esta inconsistência pode, entre outros aspetos, dever-se à metodologia empregue, mais especificamente à utilização de procedimentos de escolha forçada (p. ex. Robinson, Gerhardt, Vannatta, & Noll, 2007; Sung et al., 2009) e/ou a relatos dos pais para avaliar a intensidade do tratamento (Sung et al., 2009), uma vez que estes são mais propensos à subjetividade do avaliador (Kazak et al., 2012). As amplitudes de tempo muito diferentes entre o início do tratamento e o momento da avaliação e a inclusão de crianças que se encontravam em fases distintas do cancro pediátrico também podem ajudar a explicar esta inconsistência.

Assim, no **Estudo I**, procurámos contornar algumas destas limitações metodológicas e contribuir para o conhecimento atual acerca do impacto da intensidade do tratamento enquanto característica definidora do acontecimento indutor de *stress* na QdVrS genérica de crianças na fase de tratamento. Espera-se que os resultados deste estudo possam ajudar na identificação de crianças que possam necessitar de estratégias diferenciadas de atuação dos profissionais de saúde. Por outras palavras, espera-se que os resultados possam ajudar na “triagem” de crianças que possam apresentar um risco acrescido para pior QdVrS.

Intensidade do Tratamento e QdVrS no Cancro Pediátrico: Resultados da Versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Armando Pinto³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial.

Resumo

Objetivo: Este estudo teve como objetivos apresentar a versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0, uma medida objetiva para avaliar a intensidade do tratamento no cancro pediátrico, e comparar a qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS) em crianças/adolescentes com diferentes níveis de intensidade do tratamento. **Método:** A amostra foi constituída por 129 crianças/adolescentes com cancro (98 em tratamento e 31 fora de tratamento). A intensidade do tratamento foi classificada pelos médicos oncologistas pediátricos com a Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 e a QdVrS foi avaliada pelas crianças/adolescentes através do DISABKIDS Chronic Generic Measure (DCGM-12).

Resultados: As análises do coeficiente de Kappa revelaram excelentes índices de fiabilidade interavaliadores. Verificou-se a existência de diferenças estatisticamente significativas na QdVrS de acordo com o nível de intensidade do tratamento. Comparações post-hoc revelaram níveis de QdVrS superiores em crianças/adolescentes com tratamentos de intensidade 2 comparativamente aos de intensidade 3 e 4.

Conclusão: Os dados evidenciam a importância de intervenções para melhorar a QdVrS junto de potenciais grupos de risco, definidas de acordo com a intensidade do tratamento.

Palavras-Chave: criança/adolescente; médico oncologista pediátrico; neoplasia; qualidade de vida; questionário.

Introdução

O número de casos de cancro em idade pediátrica tem aumentado ao longo dos anos (Makin & Meyer, 2008), sendo a incidência global de 100-150 casos por milhão em crianças com menos de 15 anos, de acordo com a Organização Mundial de Saúde ([OMS], Michaud, Suris, & Viner, 2007). Esta condição crónica de saúde tem um impacto significativo na criança, ao nível físico, emocional, e social (Barakat, Marmer, & Schwartz, 2010), bem como na própria família (Alderfer & Kazak, 2006).

À semelhança de outros modelos teóricos que procuram explicar a adaptação da criança a uma condição crónica de saúde, o modelo Deficiência, Stress, e Coping (Wallander, Varni, Babani, Banis, & Wilcox, 1989), salienta a importância de considerar fatores de risco como as características da doença, a independência funcional, e os fatores de *stress* psicossociais. Especificamente no cancro pediátrico, o próprio tratamento oncológico, que acarreta procedimentos dolorosos, efeitos secundários imediatos (Bleyer, 2003; Brown, 2006; Stehl et al., 2009), e possíveis sequelas a médio e longo prazo (Bleyer, 2003), também pode ser considerado como um fator de risco com impacto negativo no processo de adaptação.

Os avanços no campo da oncologia pediátrica conduzem a que o tratamento oncológico seja cada vez mais orientado e individualizado, de acordo com as especificidades do indivíduo, tais como condição física, diagnóstico, fase da doença (p. ex. doença primária, recidiva), estágio ou nível de risco (Bleyer, 2003; Kazak et al., 2012). Contudo, em alguns estudos de natureza psicossocial, como na avaliação do impacto do tratamento oncológico nos processos de adaptação, especificamente na qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS), pode ser pertinente estudar semelhanças entre os protocolos de tratamento e criar meios confiáveis de agrupamento dos tratamentos (Werba et al., 2007). A avaliação da intensidade do tratamento é uma das formas de avaliar o tratamento oncológico a que a criança/adolescente com cancro está exposta. Contudo, até à data poucos estudos têm utilizado medidas objetivas, validadas, e fiáveis no estudo desta variável (p. ex. Long, Alderfer, Ewing, & Marsland, 2013; Ruccione et al., 2012).

Este estudo apresenta a versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0. Complementarmente, esta investigação mostra ainda os resultados do impacto da intensidade do tratamento, avaliado por esta escala, na QdVrS de crianças/adolescentes em tratamento.

Avaliação da intensidade do tratamento

A Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento (*The Intensity of Treatment Rating Scale - ITR*) foi criada nos anos 90, tendo como objetivo analisar a intensidade do tratamento no cancro pediátrico (Hobbie et al., 2000). Verificava-se, na altura, uma lacuna de instrumentos de avaliação da intensidade do tratamento que fossem considerados objetivos e fiáveis, e que pudessem ser aplicados a todos os diferentes diagnósticos de cancro

pediátrico, suas modalidades e tratamentos (Kazak et al., 2012). Esta escala é composta por dois componentes: níveis de intensidade e itens de conteúdo. Os níveis de intensidade compreendem quatro categorias que variam entre nível 1 (*tratamentos menos intensivos*) e o nível 4 (*tratamentos de máxima intensidade*). Os itens de conteúdo apresentam vários diagnósticos e modalidades de tratamento, sendo cada um classificado de acordo com um dos quatro níveis de intensidade. Por exemplo, o tratamento de uma recidiva, por ser mais agressivo quando comparado com o tratamento de uma doença primária, corresponde na sua maioria ao nível 4 - *tratamentos de máxima intensidade*. De acordo com as recomendações dos autores da versão original, a avaliação da intensidade do tratamento deve ser feita pelo médico oncologista pediátrico ou enfermeiro, desde que familiarizado com os dados médicos.

A Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento tem sido revista ao longo dos anos relativamente à clareza, organização, e aplicabilidade aos atuais protocolos de tratamento no cancro pediátrico (Kazak et al., 2012; Werba et al., 2007). Em 2012, Kazak e colaboradores apresentaram a versão 3.0 com alterações ao nível dos itens de conteúdo. Em comparação com a versão anterior, 11 itens foram adicionados, 2 foram removidos, 9 foram modificados e os restantes permaneceram idênticos, perfazendo um total de 43 itens de conteúdo (Kazak et al., 2012).

Ainda que a Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento nunca tenha sido utilizada noutra idioma para além do inglês, a sua utilização em diferentes amostras de cancro pediátrico tem revelado dados satisfatórios no que diz respeito à validade e a fiabilidade, tanto na versão 2.0 (Alderfer et al., 2009; Kazak et al., 2010; Stehl et al., 2009; Werba et al., 2007), como na versão 3.0 (Kazak et al., 2012).

O papel das características clínicas na QdVrS

Vários estudos salientam o impacto de algumas características clínicas na ansiedade, na depressão (Robinson, Gerhardt, Vannatta, & Noll, 2007) e, mais recentemente, na QdVrS de crianças/adolescentes com cancro (Landolt, Vollrath, Niggli, Gnehm, & Sennhauser, 2006). A QdVrS tem sido definida como a percepção de bem-estar dos pacientes em funções físicas, mentais e sociais, tratando-se de um conceito subjetivo e multidimensional (Bullinger, Schmidt, Petersen, Erhart, & Ravens-Sieberer, 2007; Varni, Burwinkle, Katz, Meeske, & Dickinson, 2002). A inclusão de variáveis de adaptação de cariz positivo, como a QdVrS, deve-se, entre outros aspetos, ao aumento da taxa de sobrevivência nos últimos 50 anos (Scheurer, Bondy, & Gurney, 2010). Este facto fez com que a conceptualização do cancro pediátrico evoluísse gradualmente de uma doença inevitavelmente fatal para uma condição crónica de saúde com risco de vida (Brown, 2006; Varni, Katz, Colegrove, & Dolgin, 1995). Por conseguinte, tornou-se fundamental avaliar a QdVrS ao longo de todo o percurso da doença (Levi, 2006).

Uma das características clínicas que explica a QdVrS é a fase de tratamento. De forma

consistente, a literatura indica que crianças/adolescentes em tratamento relatam pior qualidade de vida quando comparadas com crianças/adolescentes fora de tratamento e com a população geral (p. ex. Varni et al., 2002). Do mesmo modo, a intensidade do tratamento também tem sido considerada em estudos de adaptação, ao nível dos problemas de saúde (Schwartz et al., 2010), ansiedade (Kazak et al., 2010), *distress* (Long et al., 2013) e QdVrS. Especificamente em relação à QdVrS, alguns estudos indicam que crianças/adolescentes com tratamentos mais intensivos apresentam níveis mais baixos de QdVrS (Landolt et al., 2006; Magal-Vardi et al., 2004), mesmo depois de terminarem os tratamentos (Speechley, Barrera, Shaw, Morrison, & Maunsell, 2006). Contudo, outros estudos apontam para a inexistência desta influência em adolescentes em tratamento (Barakat et al., 2010), bem como em sobreviventes de cancro pediátrico (Kazak et al., 2010). Assim, ainda não é totalmente clara a relação entre intensidade do tratamento e QdVrS em crianças/adolescentes com cancro a receber tratamento.

Este estudo teve como objetivos: 1) apresentar o estudo de fiabilidade da versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0, de forma a que esta possa ser utilizada futuramente em Portugal; 2) analisar comparativamente a QdVrS em três grupos de crianças/adolescentes em tratamento, em função da intensidade do tratamento (níveis 2, 3 e 4). Relativamente a este objetivo, colocou-se como hipótese que a QdVrS seria influenciada pela intensidade do tratamento. Assim, pela natureza dos efeitos secundários (Kazak et al., 2012) e pelo maior risco de infeções (Mor et al., 2011) associados a tratamentos mais intensivos, esperava-se que quanto maior fosse a intensidade do tratamento, menor seria a QdVrS das crianças/adolescentes.

Método

Participantes

A amostra total foi constituída por 129 participantes, incluindo 75 rapazes (58.10%) e 54 raparigas (41.90%) entre os 8 e os 19 anos. No que se refere ao nível socioeconómico (Simões, 1994), a maioria das famílias apresentava um nível socioeconómico baixo ($n = 72$, 55.81%). Os participantes foram divididos em dois grupos clínicos de acordo com a fase de tratamento: 98 (76.00%) em tratamento e 31 (24.00%) fora de tratamento. O primeiro grupo foi formado por crianças/adolescentes que estavam em tratamento (ativo ou manutenção) durante o período de avaliação, enquanto o segundo incluiu crianças/adolescentes que tinham terminado o tratamento há menos de 5 anos. O tempo após o diagnóstico variou entre 3 e 120 meses para o grupo em tratamento ($M = 16.63$, $DP = 18.65$), e entre 9 e 132 meses para o grupo fora de tratamento ($M = 46.13$, $DP = 27.83$). O tempo desde o final do tratamento variou entre 2 e 54 meses ($M = 21.48$, $DP = 15.84$) para o último grupo. Em termos de diagnóstico, as leucemias ($n = 63$, 48.84%) e os linfomas ($n = 27$, 20.93%) foram os mais frequentes.

As características sociodemográficas e clínicas da referida amostra, são apresentadas na Tabela 1.

Tabela 1. Características Sociodemográficas e Clínicas da Amostra

	Em tratamento (n = 98)		Fora de tratamento (n = 31)	
	n	%	n	%
Idade				
8-12	44	44.90	15	48.40
13-19	54	55.10	16	51.60
Sexo				
Masculino	59	60.20	16	51.60
Feminino	39	39.80	15	48.40
Diagnóstico				
Leucemia linfoblástica aguda	44	44.90	16	51.60
Leucemia mieloblástica aguda	3	3.10	-	-
Linfoma de hodgkin	5	5.10	7	22.60
Linfoma não-hodgkin	14	14.30	1	3.20
Tumor cerebral	5	5.10	-	-
Sarcoma de ewing	9	9.20	2	6.50
Osteossarcoma	8	8.20	4	12.90
Retinoblastoma	-	-	1	3.20
Tumor de wilms	1	1.00	-	-
Sarcomas de tecidos moles	1	1.00	-	-
Tumor das células germinativas	2	2.00	-	-
Histiocitose de células de langerhans	4	4.10	-	-
Neuroblastoma	1	1.00	-	-
Outros	1	1.00	-	-
Intensidade do tratamento				
Nível 2 ^a	30	30.60	14	45.20
Nível 3 ^b	50	51.00	12	38.70
Nível 4 ^c	17	17.30	5	16.10
Fase da doença				
Doença primária	80	81.60	25	80.60
Recidiva	18	18.40	6	19.40
Nível socioeconómico				
Baixo	56	57.10	16	51.60
Médio	29	29.60	12	38.70
Alto	13	13.30	3	9.70

Nota. Na presente amostra não se verificou nenhum caso de nível 1 - Tratamentos menos intensivos.

^aTratamentos moderadamente intensivos. ^bTratamentos muito intensivos. ^cTratamentos de máxima intensidade.

Material

Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0

Esta escala permite classificar a intensidade do tratamento de forma objetiva. O médico oncologista pediátrico, com base na análise dos dados médicos extraídos previamente por outro médico ou enfermeiro (o diagnóstico, a história de recidiva, o estágio/nível de risco e a(s) modalidade(s) de tratamento [cirurgia, quimioterapia, radioterapia; transplante] classifica a intensidade do tratamento em quatro níveis de intensidade que variam entre o nível 1 (*tratamentos menos intensivos*) e o nível 4 (*tratamentos de máxima intensidade*; Kazak et al., 2012).

Após obtenção da autorização dos autores da versão original para a tradução, adaptação e utilização desta escala, procedeu-se à tradução da escala para português. Dado tratar-se de uma escala que nunca tinha sido utilizada fora dos Estados Unidos da América (EUA), foi solicitada a revisão da versão intermédia por três médicos oncologistas pediátricos de dois hospitais portugueses, de forma independente. À semelhança do que foi feito nos estudos de validação (Kazak et al., 2012; Werba et al., 2007), foi referido aos médicos oncologistas pediátricos que a intensidade do tratamento consistia na perceção destes relativamente à duração dos tratamentos, perfil dos efeitos secundários, risco de complicações, número de agentes, modalidades de tratamento, e regime para a realização dos tratamentos. Seguidamente, estes médicos foram questionados acerca da aplicabilidade da escala ao contexto português e da clareza do conteúdo. Após confirmada a aplicabilidade da escala, os médicos oncologistas pediátricos sugeriram pequenas alterações ao nível da clareza dos itens. Integradas as sugestões, procedeu-se à retroversão por um tradutor profissional. Após a comparação das duas versões em inglês (a original e a retroversão), e perante a ausência de diferenças significativas entre ambas, os autores chegaram à versão final (Figura 1).

DISABKIDS Chronic Generic Measure

A qualidade de vida relacionada com a saúde (QdVrS) foi avaliada pela versão breve do DISABKIDS Chronic Generic Measure (DCGM-12; Carona, Silva, Moreira, Canavarro, & Bullinger, 2014; European DISABKIDS Group, 2006). Este instrumento avalia a QdVrS de crianças e adolescentes com condições crónicas de saúde, entre os 8 e os 16 anos de idade. O questionário é composto por 12 itens, com questões como “A tua vida é dominada pelo teu problema de saúde?” ou “Sentes-te igual às outras pessoas apesar do teu problema de saúde?”, que são respondidos pelas crianças e adolescentes (auto-relato) numa escala tipo Likert que varia entre 1 (*nunca*) a 5 (*sempre*), tendo como referência as últimas 4 semanas. De acordo com as recomendações mais recentes, os dois itens relativos à medicação não foram incluídos (Muehlan, 2010). Pontuações mais elevadas são indicadoras de melhor QdVrS. Nesta amostra, o coeficiente de alfa de Cronbach foi de .84.

NI:

Instruções: Por favor, leia atentamente os critérios seguintes que elencam exemplos de diagnósticos e modalidades de tratamento em cada um dos quatro níveis de intensidade. Com base nas informações sobre o diagnóstico e tratamento de cada doente, use os critérios listados e seleccione um número para indicar a intensidade do tratamento (1, 2, 3, 4). Por favor, atribua a sua classificação com base nos critérios especificados, ao invés do seu próprio julgamento clínico.

Informação Geral														
Indique o diagnóstico e a fase da doença (doença primária ou recidiva)	Estádio ou nível de risco								Intensidade do tratamento					
	Modalidades de Tratamento				Modalidades de Tratamento				Transplante?					
	Cirurgia?		Quimioterapia?		Radioterapia?		Transplante?		1	2	3	4		
	S	N	S	N	S	N	S	N	S	N	1	2	3	4

NÍVEL 1: TRATAMENTOS MENOS INTENSIVOS	NÍVEL 2: TRATAMENTOS MODERADAMENTE INTENSIVOS	NÍVEL 3: TRATAMENTOS MUITO INTENSIVOS	NÍVEL 4: TRATAMENTOS DE MÁXIMA INTENSIDADE
<p>Inclui tratamentos menos intensivos, para estes diagnósticos ou modalidades de tratamento:</p> <ul style="list-style-type: none"> ▪ Só cirurgia - todos os tumores, excepto tumores cerebrais; ▪ Retinoblastoma - enucleação (doença unilateral) sem quimioterapia; ▪ Tumor de wilmis (estádios 1, 2); ▪ Leucemia mielóide crónica - qualquer quimioterapia, incluindo inibidores de tirosina quinases; ▪ Histioctose de células de langerhans - cirurgia ou só injeção de esteróides. 	<p>Inclui tratamentos moderadamente intensivos, para estes diagnósticos ou modalidades de tratamento:</p> <ul style="list-style-type: none"> ▪ Leucemia linfoblástica aguda (risco baixo, normal ou intermédio; precursor de células B); ▪ Tumor cerebral - uma modalidade de tratamento, não inclui biópsia; ▪ Tumor das células germinativas - com quimioterapia ou radioterapia; ▪ Hepatoblastoma (sem metástases) - com quimioterapia e ressecção cirúrgica; ▪ Linfoma de hodgkin (risco baixo, intermédio) todos os estádios excepto IIIB, IVB; ▪ Histioctose de células de langerhans - com quimioterapia; ▪ Neuroblastoma/Ganglioneuroblastoma (estádios 1, 2, e estágio 4S) - com quimioterapia; ▪ Linfoma não-hodgkin (estádios 1, 2, 3 e grupos A, B); ▪ Retinoblastoma - com quimioterapia; ▪ Rabdomyosarcoma (estádios 1, 2); ▪ Carcinoma da tireóide; ▪ Outro tumor - só quimioterapia ou radioterapia. 	<p>Inclui tratamentos muito intensivos, para estes diagnósticos ou modalidades de tratamento:</p> <ul style="list-style-type: none"> ▪ Protocolos de recidiva para linfoma de hodgkin e tumor wilmis, apenas 1^o recidiva; ▪ Leucemia linfoblástica aguda (risco elevado, risco muito elevado; precursor de células T); ▪ Leucemia mielóide aguda e síndrome de down; ▪ Leucemia promielocítica aguda; ▪ Leucemia bifenotípica - tratada como leucemia linfoblástica aguda; ▪ Tumor cerebral - 2 ou mais modalidades de tratamento; ▪ Carcinoma não especificado - 2 ou mais modalidades de tratamento; ▪ Sarcoma de ewing; ▪ Hepatoblastoma (com metástases); ▪ Linfoblastose hemoligética - só quimioterapia; ▪ Linfoma de hodgkin (estádio 3B, 4, risco elevado); ▪ Leucemia mielomonocítica juvenil - pré-transplante/só quimioterapia; ▪ Carcinoma da nasofaringe; ▪ Neuroblastoma/Ganglioneuroblastoma (estádios 3, 4) - sem transplante; ▪ Linfomas não-hodgkin (grupo C ou estágio 4); ▪ Osteossarcoma; ▪ Rabdomyosarcoma (estádios 3, 4); ▪ Sarcomas de tecidos moles - 2 ou mais modalidades de tratamento; ▪ Tumor de wilmis (estádios 3, 4) - 3 modalidades de tratamento; ▪ Outro tumor - 2 ou 3 modalidades de tratamento. 	<p>Inclui os tratamentos de máxima intensidade, para estes diagnósticos ou modalidades de tratamento:</p> <ul style="list-style-type: none"> ▪ Protocolos de recidiva - excluindo linfoma hodgkin; 1^a recidiva de tumor de wilmis; histioctose de células de langerhans com tratamento sistémico; leucemia mielóide crónica com um inibidor de tirosina quinases diferente; ▪ Transplante de células hematopoiéticas - todas as doenças; ▪ Leucemia mielóide aguda; ▪ Leucemia bifenotípica - tratada como leucemia mielóide aguda; ▪ Leucemia mielomonocítica juvenil - com transplante; ▪ Tumor cerebral - com transplante de células hematopoiéticas.

*** No caso de existir mais do que um tumor, classificar o tumor que se enquadra no nível mais elevado.

Figura 1. Versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0.

Ficha de dados sociodemográficos e clínicos

Outra informação clínica relevante (p. ex. data do diagnóstico, data do final dos tratamentos) e os dados sociodemográficos foram fornecidos por um dos cuidadores familiares (em 79.8% dos casos, as mães) através de um questionário elaborado para o efeito. O nível socioeconómico foi determinado com base na profissão de ambos os cuidadores familiares e no nível de escolaridade (Simões, 1994).

Procedimentos

Este estudo enquadra-se num projeto mais vasto intitulado “Fatores familiares e adaptação no cancro pediátrico: Um estudo com crianças/adolescentes e seus cuidadores familiares” (atual: “Adaptação individual e familiar no cancro pediátrico: Fatores e contextos de influência”), que obteve a aprovação das Comissões de Ética do Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial e do Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial. A amostra foi recolhida nos serviços de ambulatório ($n = 107$) e internamento ($n = 22$) destes dois hospitais públicos, de acordo com os seguintes critérios: 1) idade compreendida entre 8-20 anos; 2) diagnóstico clínico de cancro há pelo menos 3 meses; 3) estar a receber ou ter terminado os tratamentos há menos de 5 anos; 4) ausência de atraso desenvolvimental ou comorbilidade com outra condição crónica de saúde. Todos os participantes que estavam internados no momento da avaliação, devido a isolamento ou a receber cuidados paliativos, foram excluídos do estudo.

Para a recolha de dados foi feito previamente um pedido de colaboração voluntária no estudo a todas as crianças/adolescentes e respetivos cuidadores familiares entre junho de 2012 e janeiro de 2013 (amostragem consecutiva). Os investigadores explicaram aos participantes a natureza e os objetivos do estudo, e foi garantida a confidencialidade e o anonimato das respostas. Finalmente, todos os cuidadores familiares e crianças com idade superior a 13 anos assinaram o consentimento informado e as crianças mais novas forneceram o assentimento informado. Dos 130 contactados, 129 aceitaram participar na investigação. Os questionários foram preenchidos nos próprios hospitais e na presença investigadores preparados para o efeito.

Análise Estatística

Para o tratamento estatístico dos dados recorreu-se à versão 20.0 do Statistical Package for the Social Sciences (IBM SPSS Inc., Chicago, IL). Foram obtidas estatísticas descritivas em relação às características sociodemográficas e clínicas da amostra. Seguidamente, analisou-se a fiabilidade interavaliadores, em relação a uma parte da amostra, constituída por 59 participantes, através do coeficiente Kappa de Cohen para variáveis categoriais $\geq .81$ quase perfeito (Alferes & Kenny, 2009; Landis & Koch, 1977). De acordo com

o sugerido pelos autores da escala original, a amostra foi constituída por crianças/adolescentes em duas fases do tratamento (em tratamento e fora de tratamento). A avaliação foi feita separadamente por dois médicos: o médico oncologista pediátrico de referência e um segundo médico oncologista pediátrico do mesmo hospital, que tiveram acesso aos dados médicos extraídos previamente.

Recorreu-se ainda à análise de variância (ANOVA) unifactorial para a comparação de médias de QdVrS entre três grupos de intensidade do tratamento (níveis 2, 3, e 4) para o grupo em tratamento (44 crianças e 54 adolescentes), após se ter verificado a não violação dos pressupostos da normalidade (teste de Kolmogorov-Smirnov, $p > .05$) e da homogeneidade da variância (teste de Levene, $p > .05$). De acordo com as orientações de Cohen (1988) para interpretar o η^2 , o tamanho do efeito foi considerado pequeno, médio e grande, na presença de valores $\geq .01$, $\geq .06$, e $\geq .14$, respetivamente. Para as comparações múltiplas recorreu-se ao teste post-hoc LSD de Fisher, considerando-se $\alpha = .05$ como nível de significância. A opção por este teste post-hoc justifica-se pelo número reduzido de grupos (Marôco, 2011).

Resultados

Fiabilidade Interavaliadores

A fiabilidade interavaliadores da intensidade do tratamento foi testada para uma parte da amostra, constituída por 31 crianças/adolescentes em tratamento e 28 crianças/adolescentes fora de tratamento. Em termos de diagnóstico, os participantes tinham sido diagnosticados com leucemia linfoblástica aguda ($n = 30$, 50.85%), leucemia mieloblástica aguda ($n = 1$, 1.69%), linfoma de Hodgkin ($n = 8$, 13.56%), linfoma não-Hodgkin ($n = 3$, 5.08%), tumor cerebral ($n = 2$, 3.39%), sarcoma de Ewing ($n = 4$, 6.78%), osteossarcoma ($n = 9$, 15.25%), retinoblastoma ($n = 1$, 1.69%), e tumor das células germinativas ($n = 1$, 1.69%). O coeficiente de Kappa revelou concordância quase perfeita para a amostra total ($k = .97$, $p < .001$), para o grupo em tratamento ($k = 1$, $p < .001$) e para o grupo fora de tratamento ($k = .95$, $p < .001$; Landis & Koch, 1977).

Diferenças de Médias na QdVrS

A análise de variância revelou um efeito estatisticamente significativo da intensidade do tratamento na QdVrS, $F(2, 94) = 3.62$, $p = .03$, $\eta^2 = .07$ (Tabela 2). Para analisar quais os pares de médias estatisticamente significativos, foi realizado o teste post-hoc LSD de Fisher, que relevou que as crianças/adolescentes com tratamento de intensidade de nível 2 apresentavam melhor QdVrS quando comparadas com crianças/adolescentes com tratamentos de intensidade de nível 3 e de nível 4. Não se verificaram diferenças estatisticamente significativas na QdVrS entre crianças/adolescentes com intensidade do tratamento de nível 3 e de nível 4.

Tabela 2. Análise de Variância (ANOVA) Unifactorial para Comparação de Médias de QdVrS nos Três Grupos de Intensidade do Tratamento

	Nível 2 Tratamentos moderadamente intensivos (n = 30)		Nível 3 Tratamentos muito intensivos (n = 50)		Nível 4 Tratamentos de máxima intensidade (n = 17)		F (2,94)	P	Post-hoc test LSD
	M	DP	M	DP	M	DP			
QdVrS	4.32	0.57	3.94	0.69	3.90	0.66	3.62	.03	2 > 3*, 4**

*p = .02. **p = .04.

Discussão

O presente trabalho teve dois objetivos examinar a fiabilidade da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 e verificar se a intensidade do tratamento influenciava a QdVrS. Os resultados sugeriram bons índices de fiabilidade e indicaram que as crianças/adolescentes com nível 3 e 4 apresentaram pior QdVrS comparativamente às de nível 2. Globalmente, estes resultados atestam que esta é uma escala útil para avaliar a intensidade do tratamento na população pediátrica portuguesa tanto na prática clínica, como na investigação.

À semelhança do observado nas versões anteriores (Alderfer et al., 2009; Kazak et al., 2012; Werba et al., 2007), a Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0, apresentou excelentes níveis de fiabilidade ao nível da concordância interavaliadores tanto em crianças/adolescentes em tratamento como fora de tratamento. Estes resultados reforçam a qualidade da escala, que se afirma como uma alternativa às escalas baseadas em procedimentos de escolha forçada (p. ex. Robinson et al., 2007), mais propensas à subjetividade do avaliador (Kazak et al., 2012).

O segundo objetivo do presente estudo consistiu em perceber se a intensidade do tratamento antineoplásico influenciava a QdVrS de crianças/adolescentes em tratamento. Os resultados corroboraram estudos anteriores que apontaram para uma influência negativa dos tratamentos na perceção da QdVrS (Kazak et al., 2012). De acordo com o previsto os resultados encontrados demonstraram que as crianças/adolescentes com tratamentos de intensidade de nível 2 apresentavam melhor QdVrS comparativamente com crianças/adolescentes de nível 3 e de nível 4. Estudos prévios já tinham verificado que tratamentos mais intensivos e com mais complicações (exemplo: hospitalizações devido a infeções) comprometem a QdVrS motora e emocional de crianças/adolescentes em tratamento (Landolt et al., 2006). Também no estudo de Speechley e colaboradores (Speechley et al., 2006) as diferenças encontradas ao nível da QdVrS entre um grupo de crianças/adolescentes sobreviventes e um grupo controlo foram explicadas através da intensidade do tratamento. Destacou-se a existência de maiores diferenças, especificamente na dimensão física da QdVrS, quando os tratamentos eram mais intensivos, ou seja, quando combinavam a radioterapia, a cirurgia, e a quimioterapia. Este resultado era esperado, na

medida em que tratamentos mais intensivos acarretam maior risco de infeções (Mor et al., 2011), maior necessidade de transfusões com riscos inerentes (Thompson, Gerhardt, Miller, Vannatta, & Noll, 2009), maior número de isolamentos, maior astenia, ou seja, mais efeitos secundários (Kazak et al., 2012) que podem agravar o sofrimento da criança/adolescente e afetar negativamente a sua perceção de QdVrS.

É de referir que num outro estudo de Barakat e colaboradores (Barakat et al., 2010), com adolescentes em tratamento, não foi encontrada uma associação entre a intensidade do tratamento e a QdVrS. Contudo, este resultado distinto pode dever-se ao facto de estes autores terem incluído nas análises variáveis familiares, que podem ter tido um peso maior na variância da QdVrS. Além disso, a maior amplitude de tempo desde o diagnóstico pode também justificar as diferenças encontradas. Esta possível explicação é congruente com os resultados de um estudo longitudinal (Landolt et al., 2006), que refere que a intensidade do tratamento deixa de influenciar a QdVrS ao longo do curso do tratamento, devido a uma diminuição posterior da intensidade do tratamento e a processos de ajustamento das próprias crianças/adolescentes aos tratamentos (Rolland, 2012).

Ao contrário do esperado, não foram encontradas diferenças estatisticamente significativas na QdVrS entre tratamentos de intensidade de nível 3 e de nível 4. Este resultado pode ser explicado pelo facto de, em níveis mais elevados de intensidade dos tratamentos, poder haver menos variabilidade na forma como as crianças/adolescentes percecionam o impacto destas nas suas vidas (Kazak et al., 2010).

O presente estudo apresenta algumas limitações. Em primeiro lugar, o instrumento utilizado para avaliar a QdVrS é uma medida genérica para condições crónicas de saúde e, portanto, poderá não ser sensível às idiosincrasias de crianças/adolescentes com cancro. Em futuras investigações será importante complementar a avaliação da QdVrS com medidas mais sensíveis a dimensões que são relevantes no contexto do cancro pediátrico, como a dor, náusea, preocupação, perceção da aparência física (p. ex. o *Pediatric Quality of Life Inventory™ 3.0 - Módulo do cancro*; Varni et al., 2002). Em segundo lugar, o tamanho reduzido da amostra impõe alguma cautela na interpretação da ausência de diferenças entre a intensidade dos tratamentos de nível 3 e de nível 4. Assim, em futuros estudos com amostras de maior dimensão dever-se-á explorar mais aprofundadamente esta questão. Adicionalmente, seria pertinente analisar quais as variáveis que melhor predizem a QdVrS ao longo do curso da doença e dos tratamentos, numa tentativa de explorar se existem fatores potencialmente modificáveis que atuem como fatores protetores para a QdVrS. Dado os constantes progressos em ensaios clínicos e alterações dos protocolos de tratamento no cancro pediátrico, salienta-se ainda a necessidade de estudos futuros que atualizem a Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0, para assegurar que a classificação abrange os tratamentos mais atuais.

Este estudo apresenta vários pontos fortes, como o recurso a uma medida objetiva para

avaliar a intensidade do tratamento em substituição do uso exclusivo das perspetivas subjetivas dos pacientes e dos cuidadores familiares, as quais têm sido associadas a maior risco de viés. A apresentação da versão portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0, que permite discriminar diferentes níveis de QdVrS, pode ser útil na identificação de potenciais grupos de risco para pior QdVrS. Acresce ainda o facto de neste estudo se ter considerado o auto-relato das crianças e adolescentes sobre o seu próprio bem-estar, em vez dos relatos dos cuidadores familiares, que têm revelado inconsistências quando comparados com os auto-relatos (Eiser, Hill, & Vance, 2000). Finalmente, realça-se que a Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 pode ser utilizada em amostras heterogéneas, no que se refere ao diagnóstico e às modalidades de tratamento.

Conclusão

Os resultados do presente estudo têm implicações relevantes para a investigação no contexto do cancro pediátrico e para a intervenção de profissionais de saúde que trabalham com crianças e adolescentes com cancro. Realça-se a importância de um trabalho multidisciplinar, na medida em que o médico oncologista pediátrico ao avaliar a intensidade do tratamento pode, em articulação com os profissionais de saúde mental, contribuir para a identificação precoce de grupos de risco para pior adaptação que possam vir a beneficiar de programas de promoção de bem-estar e QdVrS.

As diferenças encontradas na QdVrS de crianças e adolescentes em tratamento fortalecem a necessidade de os programas de intervenção serem específicos, tendo em conta o nível de intensidade do tratamento. Adicionalmente, relançam a reflexão sobre a complexa questão relativa à função dos tratamentos, sendo cada vez mais consensual que estes deverão não só aumentar a esperança de vida, como também preservar a qualidade de vida das crianças e adolescentes (Eiser & Morse, 2001).

Financiamento

Susana Santos é apoiada por Bolsa Individual de Doutoramento da Fundação para a Ciência e Tecnologia, cofinanciada pelo Fundo Social Europeu (SFRH/BD/80777/2011).

Conflito de Interesses. Os autores declaram que não existem quaisquer conflitos de interesse.

Agradecimentos

Os autores não têm quaisquer apoios a declarar.

Referências

- Alderfer, M. A., & Kazak, A. E. (2006). Family issues when a child is on treatment for cancer. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 53-74). New York, NY: Oxford University Press.
- Alderfer, M. A., Mougianis, I., Barakat, L. P., Beele, D., DiTaranto, S., Hwang, W.-T., . . . Kazak, A. E. (2009). Family psychosocial risk, distress, and service utilization in pediatric cancer: Predictive validity of the Psychosocial Assessment Tool. *Cancer*, *115*, 4339-4349. doi:10.1002/cncr.24587
- Alferes, V. R., & Kenny, D. A. (2009). SPSS programs for the measurement of nonindependence in standard dyadic designs. *Behavior Research Methods*, *41*, 47-54. doi:10.3758/BRM.41.1.47
- Barakat, L. P., Marmer, P. L., & Schwartz, L. A. (2010). Quality of life of adolescents with cancer: Family risks and resources. *Health and Quality of Life Outcomes*, *8*, Article 63. doi:10.1186/1477-7525-8-63
- Bleyer, A. (2003). Principles of treatment. In R. E. Behrman, R. M. Kliegman, & H. B. Jenson (Eds.), *Nelson textbook of pediatrics* (pp. 1688-1694). Philadelphia, PA: Saunders.
- Brown, R. T. (2006). Why a comprehensive handbook on pediatric psychosocial oncology/hematology. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 3-16). New York, NY: Oxford University Press.
- Bullinger, M., Schmidt, S., Petersen, C., Erhart, M., & Ravens-Sieberer, U. (2007). Methodische Herausforderungen und Potentiale der Evaluation gesundheitsbezogener Lebensqualität für Kinder mit chronischen Erkrankungen im medizinischen Versorgungssystem [Methodological challenges and potentials of health-related quality of life evaluation in children with chronic health conditions under medical health care]. *Medizinische Klinik*, *102*, 734-745. doi:10.1007/s00063-007-1092-6
- Carona, C., Silva, N., Moreira, H., Canavarro, M. C., & Bullinger, M. (2014). *Does the small fit them all? The utility of Disabkids-10 Index for the assessment of pediatric health-related quality of life across age groups, genders and informants*. Manuscript submitted for publication.
- Cohen, J. (1988). *Statistical power analysis for the behavioral sciences* (2nd ed.). Hillsdale, NJ: Lawrence Erlbaum.
- Eiser, C., Hill, J. J., & Vance, Y. H. (2000). Examining the psychological consequences of surviving childhood cancer: Systematic review as a research method in pediatric psychology. *Journal of Pediatric Psychology*, *25*, 449-460. doi:10.1093/jpepsy/25.6.449

- Eiser, C., & Morse, R. (2001). The measurement of quality of life in children: Past and future perspectives. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 22, 248-256. doi:10.1097/00004703-200108000-00007
- European DISABKIDS Group. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich, Germany: Pabst Science Publishers.
- Hobbie, W. L., Stuber, M., Meeske, K., Wissler, K., Rourke, M. T., Ruccione, K., . . . Kazak, A. E. (2000). Symptoms of posttraumatic stress in young adult survivors of childhood cancer. *Journal of Clinical Oncology*, 18, 4060-4066.
- Kazak, A. E., DeRosa, B. W., Schwartz, L. A., Hobbie, W., Carlson, C., Ittenbach, R. F., . . . Ginsberg, J. P. (2010). Psychological outcomes and health beliefs in adolescent and young adult survivors of childhood cancer and controls. *Journal of Clinical Oncology*, 28, 2002-2007. doi:10.1200/JCO.2009.25.9564
- Kazak, A. E., Hocking, M. C., Ittenbach, R. F., Meadows, A. T., Hobbie, W., DeRosa, B. W., . . . Reilly, A. (2012). A revision of the intensity of treatment rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatric Blood & Cancer*, 59, 96-99. doi:10.1002/pbc.23320
- Landis, J. R., & Koch, G. G. (1977). The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics*, 33, 159-174. doi:10.2307/2529310
- Landolt, M. A., Vollrath, M., Niggli, F. K., Gnehm, H. E., & Sennhauser, F. H. (2006). Health-related quality of life in children with newly diagnosed cancer: A one year follow-up study. *Health and Quality of Life Outcomes*, 4, Article 63. doi:10.1186/1477-7525-4-63
- Levi, R. B. (2006). Quality of life in childhood cancer: Meaning, methods, and missing pieces. In R. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 170-188). New York, NY: Oxford University Press.
- Long, K. A., Alderfer, M. A., Ewing, L. J., & Marsland, A. L. (2013). The role of contextual threat in predicting self-reported distress among siblings of children with cancer. *Journal of Clinical Psychology in Medical Settings*, 20, 199-208. doi:10.1007/s10880-012-9321-4
- Magal-Vardi, O., Laor, N., Toren, A., Strauss, L., Wolmer, L., Bielorai, B., . . . Toren, P. (2004). Psychiatric morbidity and quality of life in children with malignancies and their parents. *The Journal of Nervous and Mental Disease*, 192, 872-875. doi:10.1097/01.nmd.0000146881.00129.ec
- Makin, G., & Meyer, S. (2008). Oncology. In N. McIntosh, P. Helms, R. Smyth, & S. Logan (Eds.), *Forfar and Arneil's textbook of pediatrics* (7th ed., pp. 991-1038). New York, NY: Churchill Livingstone.

- Marôco, J. (2011). *Análise estatística com o SPSS Statistics* (5th ed.). Pero Pinheiro, Portugal: ReportNumber.
- Michaud, P. A., Suris, J. C., & Viner, R. (2007). *The adolescent with a chronic condition: Epidemiology, developmental issues and health care provision*. Genève, Switzerland: World Health Organization.
- Mor, M., Gilad, G., Kornreich, L., Fisher, S., Yaniv, I., & Levy, I. (2011). Invasive fungal infections in pediatric oncology. *Pediatric Blood & Cancer*, 56, 1092-1097. doi:10.1002/psc.23005
- Muehlan, H. (2010). *Developing the DCGM-12: A short-form of the DISABKIDS condition-generic module assessing health related quality of life in children and adolescents with chronic conditions* (Unpublished doctoral dissertation). University of Hamburg, Hamburg, Germany.
- Robinson, K. E., Gerhardt, C. A., Vannatta, K., & Noll, R. B. (2007). Parent and family factors associated with child adjustment to pediatric cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, 32, 400-410. doi:10.1093/jpepsy/jsl038
- Rolland, J. S. (2012). Mastering family challenges in serious illness and disability. In F. Walsh (Ed.), *Normal family processes* (4th ed., pp. 452-482). New York, NY: Guilford Press.
- Ruccione, K. S., Mudambi, K., Sposto, R., Fridey, J., Ghazarossian, S., & Freyer, D. R. (2012). Association of projected transfusional iron burden with treatment intensity in childhood cancer survivors. *Pediatric Blood & Cancer*, 59, 697-702. doi:10.1002/psc.24046
- Scheurer, M. E., Bondy, M. L., & Gurney, J. G. (2010). Epidemiology of childhood cancer. In P. A. Pizzo & D. G. Poplack (Eds.), *Principles and practice of pediatric oncology* (6th ed., pp. 2-16). Philadelphia, PA: Lippincott Williams & Wilkins.
- Schwartz, L. A., Mao, J. J., DeRosa, B. W., Ginsberg, J. P., Hobbie, W. L., Carlson, C. A., . . . Kazak, A. E. (2010). Self-reported health problems of young adults in clinical settings: Survivors of childhood cancer and healthy controls. *Journal of the American Board of Family Medicine*, 23, 306-314. doi:10.3122/jabfm.2010.03.090215
- Simões, M. R. (1994). *Investigações no âmbito da Aferição Nacional do Teste das Matrizes Progressivas Coloridas de Raven (M.P.C.R) [Investigations in the context of the national standardization of the Raven Coloured Progressive Matrices test (RCPM)]*. (Unpublished doctoral dissertation), University of Coimbra, Portugal, Coimbra
- Speechley, K. N., Barrera, M., Shaw, A. K., Morrison, H. I., & Maunsell, E. (2006). Health-related quality of life among child and adolescent survivors of childhood cancer. *Journal of Clinical Oncology*, 24, 2536-2543. doi:10.1200/JCO.2005.03.9628
- Stehl, M. L., Kazak, A. E., Alderfer, M. A., Rodriguez, A., Hwang, W. T., Pai, A. L., . . . Reilly, A. (2009). Conducting a randomized clinical trial of a psychological intervention for

parents/caregivers of children with cancer shortly after diagnosis. *Journal of Pediatric Psychology*, 34, 803-816. doi:10.1093/jpepsy/jsn130

Thompson, A. L., Gerhardt, C. A., Miller, K. S., Vannatta, K., & Noll, R. B. (2009). Survivors of childhood cancer and comparison peers: The influence of peer factors on later externalizing behavior in emerging adulthood. *Journal of Pediatric Psychology*, 34, 1119-1128. doi:10.1093/jpepsy/jsp019

Varni, J. W., Burwinkle, T. M., Katz, E. R., Meeske, K., & Dickinson, P. (2002). The PedsQL™ in pediatric cancer: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory™ generic core scales, multidimensional fatigue scale, and cancer module. *Cancer*, 94, 2090-2106. doi:10.1002/cncr.10428

Varni, J. W., Katz, E. R., Colegrove, R., Jr., & Dolgin, M. (1995). Perceived physical appearance and adjustment of children with newly diagnosed cancer: A path analytic model. *Journal of Behavioral Medicine*, 18, 261-278. doi:10.1007/BF01857873

Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., Banis, H. T., & Wilcox, K. T. (1989). Family resources as resistance factors for psychological maladjustment in chronically ill and handicapped children. *Journal of Pediatric Psychology*, 14, 157-173. doi:10.1093/jpepsy/14.2.157

Werba, B. E., Hobbie, W., Kazak, A. E., Ittenbach, R. F., Reilly, A. F., & Meadows, A. T. (2007). Classifying the intensity of pediatric cancer treatment protocols: The intensity of treatment rating scale 2.0 (ITR-2). *Pediatric Blood & Cancer*, 48, 673-677. doi:10.1002/pbc.21184

Secção II | Psychometric study of the European Portuguese version of the PedsQL 3.0 Cancer Module

[História e contributo do Estudo II]

Este estudo, à semelhança do anterior, pretendeu disponibilizar para o contexto português uma medida de avaliação reconhecida e validada internacionalmente, neste caso de avaliação da QdVrS específica, o Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module (PedsQL™ 3.0 Cancer Module; Varni et al., 2002). A adaptação individual das crianças diagnosticadas com cancro tem sido feita sobretudo através de instrumentos standardizados que avaliam dimensões gerais do ajustamento (p. ex. a ansiedade, a depressão ou a autoestima) ou de medidas genéricas passíveis de serem utilizadas em qualquer condição crónica de saúde. No entanto, estes instrumentos podem não ser suficientemente sensíveis para avaliar as especificidades do impacto da doença e do tratamento na adaptação individual, por outras palavras, para captar as especificidades da doença, do tratamento e dos efeitos secundários associados. Em dois estudos de revisão sistemática e de meta-análise os autores não encontraram diferenças entre crianças com cancro e crianças saudáveis (Eiser et al., 2000; Wechsler & Sanchez-Iglesias, 2013). Perante estes resultados, Eiser et al. (2000) sugere que a ausência de diferenças se pudesse dever à falta de sensibilidade dos instrumentos para capturar as especificidades. Por esse motivo vários investigadores procuraram desenvolver instrumentos específicos para o cancro pediátrico. É neste contexto que Varni et al. (2002) desenvolveram um módulo para avaliar a QdVrS (específica) de crianças com cancro, o PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*. Apesar deste tipo de instrumento não possibilitar a comparação com um grupo de controlo, contempla questões que não são abrangidas pelos instrumentos standardizados ou pelos instrumentos genéricos para condições crónicas de saúde (p. ex. o medo de uma recidiva, preocupação com os efeitos secundários/sequelas do tratamento) e que se revelam fundamentais para a compreensão do impacto do cancro. Além de incluir itens específicos para o cancro pediátrico, a riqueza deste instrumento advém da possibilidade de conseguirmos avaliar crianças com qualquer tipo de diagnóstico e nas fases de tratamento ou de pós-tratamento. Dada a inexistência de estudos de validação anteriores para a população Portuguesa do PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*, foi objetivo do **Estudo II** traduzir e apresentar as propriedades psicométricas deste instrumento. Este foi o primeiro estudo que examinou a validade fatorial através de uma análise fatorial confirmatória usando as análises de modelo de equações estruturais, no qual se testou com sucesso o modelo original proposto pelos autores da escala.

Na nossa opinião, tanto este artigo como este instrumento revelaram-se fundamentais para a compreensão dos mecanismos que explicam a QdVrS, o que, como veremos de seguida, foi evidente no **Estudo III**. Paralelamente, acreditamos que ambos possam contribuir para

futuras investigações portuguesas que estão também a crescer na área do cancro e que têm interesse nas especificidades desta experiência. Adicionalmente, acreditamos que possa concorrer, indiretamente, para a execução do plano estratégico da SIOPE, que visa a melhoria da QdV dos sobreviventes, na medida em que disponibilizamos uma medida que permite operacionalizar este constructo.

Health and Quality of Life Outcomes, 14, 20, 2016

doi:10.1186/s12955-016-0421-y

Psychometric Study of the European Portuguese Version of the PedsQL 3.0 Cancer Module

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Ananda Fernandes³, Luís Batalha³, Diana de Campos³, Armando Pinto⁴

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³UICISA: E, Escola Superior de Enfermagem de Coimbra; ⁴Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial.

Abstract

Background: Health-related quality of life (HRQoL) is an important outcome to assess the impact of cancer. This article examines the psychometric properties of the European Portuguese self-report version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module (PedsQL™ 3.0 Cancer Module) in children and adolescents with cancer. **Methods:** The participants, 332 children/adolescents diagnosed with cancer (8-18 years old), completed measures to assess HRQoL (PedsQL™ 3.0 Cancer Module and DISABKIDS Chronic Generic Measure; DCGM-12) and anxiety (Revised Children's Manifest Anxiety Scale - second edition; RCMAS-2). A subsample ($n = 52$) completed the PedsQL™ 3.0 Cancer Module a second time following one-week. The pediatric oncologists completed the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 (ITR 3.0). **Results:** For the whole sample, the PedsQL™ 3.0 Cancer Module demonstrated good item discrimination ($r_s = .30$ to $.54$). The confirmatory factor analysis testing the presence of eight first-order factors loading significantly in a second-order factor revealed an acceptable fit (CFI = $.91$; RMSEA = $.05$). The correlation of PedsQL™ 3.0 Cancer Module with DCGM-12 ($r_s = .17$ to $.58$), and with RCMAS-2 ($r_s = -.16$ to $-.51$) attested convergent validity. This inventory demonstrated minimally acceptable to very good internal consistency ($\alpha_s = .65$ to $.87$) and temporal stability (ICCs = $.61$ to $.81$). **Conclusions:** These findings demonstrate that the European Portuguese self-report version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module is a valid and reliable instrument for assessing HRQoL in pediatric cancer.

Key words: European Portuguese version; Health-related quality of life; Pediatric cancer; PedsQL™ 3.0 Cancer Module; Psychometric properties.

Background

According to the World Health Organization, the global incidence rate of childhood cancer is approximately 100-150 cases per million children and adolescents under 15 years of age [1]. In Europe, namely in Portugal, as well as in North America, leukemias are the most common childhood cancers, followed by central nervous system tumors and lymphomas [2].

Clinical advancements in the treatment of this condition have led to a relevant reduction in mortality rates in the last 50 years. Currently, 70 to 80 % of pediatric cancer patients can be cured in developed countries [3] if diagnosed and treated early [4]. This progress, however, has been achieved with aggressive medical protocols that have a significant impact on children and adolescents' daily lives, which affect, among other aspects, their health-related quality of life (HRQoL) [5]. As survivorship rates have increased concerns regarding patients' HRQoL have become key aspects in cancer care.

HRQoL is a component of the more global construct of quality of life [1] and has been defined as the patient's perception of the impact of the disease and treatment in several domains, such as physical, mental and social [6]. Although HRQoL is, by definition, self-referential, the assessment of HRQoL in children and adolescents has, until recently, primarily relied on parents' reports [e.g., 7]. However, recent studies highlight that child reports cannot be substituted with the parent reports, with the exception of patients too young, too cognitively impaired, or too ill or fatigued to complete a HRQoL assessment instrument [8]. Hence, similar to North America, it is important to make available a reliable and valid assessment instrument in Portugal to measure children and adolescents' self-reported HRQoL in pediatric cancer patients across different statuses of treatment [9].

A recent systematic review [10] identified 13 instruments for assessing quality of life, which were developed for use with children with cancer and childhood cancer survivors. Nonetheless, only two, the Pediatric Quality of Life Inventory™ Cancer Module (PedsQL™ 3.0 Cancer Module) and the Quality of Life for Children with Cancer Scale, were appropriate taking into account the following requirements: (1) self-reported measure; (2) appropriate for any type of cancer; (3) appropriate for both on- and off-treatment status; and (4) comprising versions for both children and adolescents. Nevertheless, none of them had yet been translated and validated for Portuguese. The option for the PedsQL™ 3.0 Cancer Module was based on the fact that it was currently the most widely used measure of child health [11] and had more psychometric data published compared with other pediatric quality of life instruments [10].

However, to our knowledge, no published studies have examined the factorial structure of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module using confirmatory factor analysis (CFA). While exploratory factor analysis (EFA) is designed for situations where links between the observed and latent variables are unknown or uncertain, CFA enables a specific hypothesized structure to be tested [12]. Because the PedsQL™ 3.0 Cancer Module was developed based on a

theoretically driven model [13], the use of CFA is appropriate.

Regarding the convergent validity of the self-report version, with minor exceptions, previous studies [14-17] have identified significant positive associations between the scores of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales [13].

In addition, previous studies examining the reliability of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module self-report version have demonstrated adequate values of internal consistency [16, 17] and temporal stability [14, 15] for the total score. Regarding the subscales, some studies found values below the established cut points for internal consistency [18] and temporal stability [14, 15].

Despite the growing support for the validity and reliability of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module, to date, there is no evidence for its factorial validity, via CFA. In addition, the convergent validity and the test-retest reliability across age groups [for two exceptions: 14, 15] remain understudied.

The present research aimed at examining the psychometric properties of the self-reported European Portuguese version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module in children/adolescents. The specific objectives were to: (1) conduct descriptive and item analyses for the whole sample; (2a) test the factorial validity via CFA for the whole sample; (2b) evaluate convergent validity in two age groups (children 8-12 vs. adolescents 13-18); (3) assess the internal consistency, and the test-retest reliability in two age groups (children 8-12 vs. adolescents 13-18).

Methods

Participants

The sample was composed of 332 children/adolescents (174 boys and 158 girls) aged 8 to 18 years old ($M = 13.0$; $SD = 3.2$) who were diagnosed with leukemias ($n = 131$, 39.5 %), lymphomas ($n = 83$, 25.0 %), solid tumor - non central nervous system ($n = 86$, 25.9 %), and central nervous system tumors ($n = 32$, 9.6 %). The majority of children/adolescents had not experienced a relapse ($n = 287$, 86.4 %). Most children/adolescents ($n = 186$, 56.0 %) belonged to families with low socioeconomic status.

The participants were divided into two age groups: children ($n = 143$) aged 8 to 12 years old ($M = 9.8$; $SD = 1.6$) and adolescents ($n = 189$) aged 13 to 18 years old ($M = 15.5$; $SD = 1.5$). With regard to the main sociodemographic and clinical characteristics, the groups differed according to sex. Compared with the group of adolescents, the children's group had a higher percentage of boys. The groups did not differ in socioeconomic status, treatment status, or intensity of treatment. The sociodemographic and clinical data of the sample are shown in Table 1.

Table 1. Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample

	Whole sample N = 332		Children n = 143		Adolescents n = 189		Group differences χ ²
	n	%	n	%	n	%	
Sociodemographic							
Sex							χ ² ₍₁₎ = 4.50; p = .034; Cramér's V = .12
Male	174	52.4	85	59.4	89	47.1	
Female	158	47.6	58	40.6	100	52.9	
Socioeconomic status							χ ² ₍₂₎ = 2.98; p = .226; Cramér's V = .10
Low	186	56.0	75	52.4	111	58.7	
Medium	111	33.4	55	38.5	56	29.6	
High	35	10.5	13	9.1	22	11.6	
Clinical							
Treatment status							χ ² ₍₁₎ = 0.85; p = .357; Cramér's V = .06
On-treatment	161	48.5	74	51.7	87	46.0	
Off-treatment	171	51.5	69	48.3	102	54.0	
Intensity of treatment							χ ² ₍₃₎ = 4.59; p = .205; Cramér's V = .12
Level 1: Least intensive	12	3.6	2	1.4	10	5.3	
Level 2: Moderately intensive	112	33.7	53	37.1	59	31.2	
Level 3: Very intensive	153	46.1	63	44.1	90	47.6	
Level 4: Most intensive	55	16.6	25	17.5	30	15.9	

Procedure

The present study was approved by the Ethics Committees of three Portuguese public hospitals: the Portuguese Institute of Oncology and São João Hospital, both located in Porto, and the Pediatric Department, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra in Coimbra. Between June 2012 and September 2013 all participants who met inclusion criteria were invited to participate, using a consecutive sampling approach. Inclusion criteria consisted of having a cancer diagnosis for at least 3 months; aged 8-18 years; receiving treatment for primary diagnosed/relapsed cancer (on-treatment) or had finished antineoplastic treatments for primary diagnosed/ relapsed cancer within the last 60 months (off-treatment). The exclusion criteria consisted of comorbidity with other chronic illness (e.g., diabetes); major developmental disorders (e.g., Down syndrome); or end-of-life care. Of the 335 participants approached to participate, nearly all (n = 332) provided data (99.4 %). The two participants that declined participation indicated that they were too busy or not interested. The study aims were explained to all participants, and informed consents were obtained from all parents and from participants aged 13 years or more; assent was obtained from the younger children in accordance with the Declaration of Helsinki. The protocol was administered in a separate room in either the inpatient (n = 35, 10.5 %) or outpatient (n = 297, 89.5 %) setting in the presence of a trained undergraduate and a graduate research assistant. The

participants who were scheduled to revisit the hospital within a 1-week period were invited to complete the PedsQL™ 3.0 Cancer Module a second time. Twenty-two children ($M = 9.9$; $SD = 1.5$) and thirty adolescents ($M = 15.1$; $SD = 1.5$) on-treatment agreed to do so and were included in the test-retest analyses.

Linguistic validation was conducted for the PedsQL™ 3.0 Cancer Module, following the PedsQL Linguistic Validation Guidelines [19]. The original scale was translated independently by two bilingual translators whose native language was Portuguese. The two translated versions were analyzed by a research group composed of five members (two psychologists and three nurses), who agreed on a single reconciled version. A third bilingual translator conducted back-translation of this reconciled version. The comparison of the back-translation with the original source version found no inaccuracies in the translation. Then, a face-to-face interview was conducted by a graduate research assistant that inquired whether the participants, five children and five adolescents with cancer who were Portuguese native speakers, had any difficulty in understanding the scale's items; the patients' interpretations of the items were also examined. Because the participants did not report difficulty in understanding the items or in using the response scale, the reconciled version was adopted as the final version.

Measures

HRQoL (Cancer-Specific)

The PedsQL™ 3.0 Cancer Module [13] is the most updated version of the initial PedsQL™ 1.0 Cancer Module [20]. There is a self-report version for children (age range 8-12 years) and another one for adolescents (age range 13-18 years), that differs only in the wording of the instructions (i.e., “child(ren)” vs. “teen(s)”). Both these versions are composed of 27 items grouped into eight subscales: Pain and Hurt (2 items), Nausea (5 items), Procedural Anxiety (3 items), Treatment Anxiety (3 items), Worry (3 items), Cognitive Problems (5 items), Perceived Physical Appearance (3 items), and Communication (3 items). The participants evaluated how frequently a specific problem occurred in the past one month (e.g., “I worry about side effects from medical treatments”) using a 5-point Likert scale ranging from 0 (*never*) to 4 (*almost always*). For more detail about the Portuguese and English originals versions of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module, see Additional file 1. According to the original authors' recommendations, the items were reverse-scored and linearly transformed to fit a 0-100 scale with higher scores indicating better HRQoL. Subscales and total scores were computed by taking the average of the item scores.

HRQoL (Chronic health conditions)

The Portuguese version of the short-form of the DISABKIDS Chronic Generic Measure [DCGM-12, 21] was used to assess HRQoL. This instrument assesses the HRQoL of

children/adolescents aged 8-16 years old with chronic health conditions. According to recent recommendations [22], the final two items that concern medication were not included. The participants answered items (e.g., “Does your condition get you down?”, “Is your life ruled by your condition?”) on a 5-point Likert scale ranging from 1 (*never*) to 5 (*always*). After reverse-scoring six items, an overall score was obtained by averaging the sum of all items, with higher scores indicating better HRQoL. Cronbach’s alpha for the short-form was $r = .84$ [22]. For our sample, Cronbach’s alpha ranged from .78 (children) to .85 (adolescents).

Anxiety

Anxiety was assessed using the Portuguese version of the Revised Children’s Manifest Anxiety Scale-Second Edition (RCMAS-2). The RCMAS-2 is a self-report instrument designed to measure anxiety in children/adolescents between 6 and 19 years old [23]. The participants answered 10 items in short-form (e.g., “I often worry about something bad happening to me”, “I have too many headaches”) using a dichotomous response format. Higher scores indicate more anxiety. As reported in the technical manual, a test-retest reliability of the short-form over one-week was .54 and Cronbach’s alpha was .82 [23]. The Kuder-Richardson coefficient (KR-20) in the present sample was .68 for children and .62 for adolescents.

Intensity of treatment

The Portuguese version of the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 [ITR-3.0; 24] was used to assess the intensity of treatment. Fourteen pediatric oncologists used data from the medical records, blind to patient identity, to classify each child’s treatment into 1 of 4-levels of intensity, from 1 (*least intensive treatment*) to 4 (*most intensive treatment*), based on the diagnosis, the phase of illness (primary diagnosis or relapse), the stage/risk level for the patient, and the treatment modalities. Inter-rater reliability for a subset of this sample ($n = 59$) was $k = .97$ [25].

Socioeconomic status

The socioeconomic status of each family was classified in three levels (*low*, *medium* and *high*) using data from both parents’ job and educational level, according to an accepted classification system for the Portuguese context [26].

Data analysis

Data analysis was conducted using Statistical Package for the Social Sciences (SPSS) and Analysis of Moment Structures (AMOS), versions 20.0 (IBM, SPSS Inc., Chicago, IL). Chi-square analyses were conducted to compare the two age groups regarding sociodemographic and clinical characteristics. Acceptance of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module was assessed, by referring to the percentage of missing values per item. For descriptive and item analyses, the means, standard deviations, medians, interquartile ranges of the total score, subscales and

items were computed. Floor and ceiling effects, skewness and kurtosis in the distributions of scores were also calculated. Floor or ceiling effects were considered to be present if more than 15 % of respondents achieved the lowest or highest possible score, respectively [27, 28]. Considering a sample size of more than 300 participants ($N = 332$), absolute skewness values of over 2 or absolute kurtosis over 7 were used as reference values for determining substantial non-normality [29, 30]. In addition, corrected item to total scale correlations were calculated; values $r > .20$ and $\geq .30$ indicated moderate discrimination and good discrimination, respectively [31].

A CFA using robust Maximum likelihood (ML) was conducted to test whether the empirical data confirmed the factorial structure of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module proposed in the theoretical model advanced by Varni et al. [13], which included a general second-order factor that informed eight specific subscales. A threshold of .40 was used for factor loadings [32]. To assess for model fit, evaluation of the chi-square statistic is recommended. However, because chi-square is sensitive to sample size [33], other goodness of fit indices were considered, including the comparative fit index (CFI) and the root mean square error of approximation (RMSEA) [12]. Values equal or above .90, and .95 for the CFI are considered acceptable and very good fit, respectively [34]. For RMSEA, a value lower than .01 indicates a great fit, values from .02 to .05 indicate a good fit and values up to .08 indicate an acceptable fit [34].

The convergent validity was assessed through Pearson correlation coefficients between the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the DCGM-12, an additional measure of HRQoL, and between the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the RCMAS-2, a measure of a different construct, that is, anxiety, which is theoretically related with HRQoL [35, 36].

The internal consistency was measured with Cronbach's alpha coefficients [37] values were considered to be unacceptable ($< .60$), undesirable (.60-.65), minimally acceptable (.65-.70), respectable (.70-.80), and very good (.80-.90), according to DeVellis [35]. Test-retest reliability was assessed with intraclass correlation coefficient (ICC); values $\leq .40$ were considered to be weak; values .41-.60 were considered to be moderate; values .61-.80 were considered to be good and values $\geq .81$ were considered to be excellent [38].

The effect sizes [39] are reported for comparison and association analyses (small: $r \geq .10$, Cramer's $V \geq .01$; medium: $r \geq .30$, Cramer's $V \geq .03$; large: $r \geq .50$, Cramer's $V \geq .05$).

Results

Descriptive and item analyses

The percentage of missing items was 0 %. The means, standard deviations, medians, interquartile ranges, floor and ceiling effects, skewness, kurtosis, and corrected item to total scale correlations for the whole sample are presented in Table 2. There were no floor effects for the total score, subscales, and items, except for two items of the Worry subscale (W15,

W16). There were ceiling effects for all items, six subscales (Pain and Hurt, Nausea, Procedural Anxiety, Treatment Anxiety, Perceived Physical Appearance, Communication) but not for the total score. The skewness statistic was -0.45 for the total score and ranged from -1.81 to -0.11 for the subscales and between -2.45 and 0.08 for the items. The kurtosis statistic was -0.17 for the total score and ranged from -0.99 to 2.69 for the subscales and between 1.33 and 6.14 for the items. Except for one item of the Treatment Anxiety subscale (TA11), skewness and kurtosis values of all items, all subscales and total score were below the thresholds of 2 and 7, respectively suggested normality was not violated. The item-total correlation coefficients ($r_s = .30$ to $.54$) suggested good discrimination of the items.

Validity

Factorial validity

Results are provided in Fig. 1. A second-order CFA, which comprised eight first-order factors and one second-order factor, demonstrated acceptable fit to the data ($\chi^2_{316} = 590.80$; $p < .001$; CFI = .91; RMSEA = .05, 90 % CI .05, .06). All standardized items loaded significantly in their respective factors, with the factor loadings ranging from .47 to .88. Similarly, all eight first-order factors loaded significantly in the second-order factor, with the factor loadings ranging from .42 to .69.

Convergent validity

As shown in Table 3, the PedsQL™ 3.0 Cancer Module was significantly and positively correlated with DCGM-12 and negatively correlated with the RCMAS-2, with the exception of the children's reports of Nausea and Procedural Anxiety, which did not reach significance. For the whole sample and both age groups, most correlations were medium to large.

Reliability

As indicated in Table 4, for the whole sample and both age groups, the total scale had very good internal consistency. For the subscales, the scores were more heterogeneous, with values that ranged from minimally acceptable to very good internal consistency, with the exception of the children's reports of Pain and Hurt, Cognitive Problems, and Perceived Physical Appearance. With regard to the test-retest ICC values for the total scale and subscales, these were good to excellent, with the exception of Pain and Hurt and Cognitive Problems for children, who presented moderate values (Table 4).

Table 2. Descriptive and Item Analyses of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module (N = 332)

Total Score/Subscales /Items	Mean	SD	Median	IQR	Floor, %	Ceiling, %	Skewness	Kurtosis	Corrected item-total correlations
Total Score	75.1	13.6	75.9	18.3	0.0	0.6	-0.45	-0.17	---
Pain and Hurt	81.0	21.8	87.5	37.5	0.6	42.8	-1.10	0.65	---
PH1	78.4	25.5	100.0	50.0	0.9	50.3	-0.86	-0.32	.44
PH2	83.7	23.3	100.0	25.0	1.8	59.3	-1.42	1.64	.40
Nausea	74.1	25.0	80.0	40.0	0.6	24.1	-0.81	-0.32	---
N3	70.5	34.6	100.0	50.0	9.3	50.3	-0.75	-0.79	.44
N4	72.8	32.2	87.5	50.0	7.2	50.0	-0.85	-0.43	.43
N5	81.9	28.0	100.0	44.0	3.9	64.5	-1.41	1.01	.46
N6	78.8	28.5	100.0	50.0	3.9	56.3	-1.16	0.38	.49
N7	66.4	32.1	75.0	50.0	7.2	38.3	-0.48	-0.87	.51
Procedural Anxiety	76.9	25.2	83.3	41.7	1.2	31.3	-1.09	0.36	---
PA8	69.1	31.1	75.0	50.0	8.1	36.4	-0.80	-0.31	.39
PA9	84.9	25.7	100.0	25.0	2.7	67.8	-1.69	2.04	.40
PA10	76.7	30.6	100.0	50.0	6.3	53.6	-1.16	0.29	.36
Treatment Anxiety	89.6	17.2	100.0	16.7	0.0	61.1	-1.81	2.69	---
TA11	90.7	19.7	100.0	0.0	1.2	76.8	-2.45	6.14	.39
TA12	91.3	17.6	100.0	0.0	0.0	76.8	-1.97	2.95	.51
TA13	86.8	23.3	100.0	25.0	2.1	69.3	-1.86	3.03	.51
Worry	55.6	28.4	58.3	50.0	3.0	10.2	-0.11	-0.99	---
W14	66.6	31.1	75.0	50.0	6.3	35.8	-0.49	-0.80	.54
W15	50.2	36.9	50.0	75.0	21.7	26.2	0.07	-1.33	.41
W16	49.9	34.8	50.0	50.0	18.4	21.7	0.08	-1.19	.48
Cognitive Problems	72.3	18.8	70.0	30.0	0.0	10.8	-0.43	-0.18	---
CP17	72.8	27.4	75.0	50.0	4.2	39.2	-0.79	0.03	.50
CP18	63.6	32.6	75.0	50.0	9.6	32.8	-0.45	-0.85	.32
CP19	74.5	27.0	75.0	50.0	4.5	41.0	-0.95	0.44	.39
CP20	72.1	27.6	75.0	50.0	3.9	38.0	-0.74	-0.15	.37
CP21	78.5	24.1	75.0	50.0	1.2	46.4	-0.89	0.11	.39
Perceived Physical Appearance	77.7	23.4	83.3	33.3	0.6	33.1	-0.97	0.20	---
PPA22	79.7	26.5	100.0	50.0	2.7	55.4	-1.11	0.43	.36
PPA23	77.5	33.8	100.0	44.0	9.6	60.8	-1.29	0.26	.30
PPA24	76.0	30.7	100.0	50.0	5.7	52.7	-1.07	0.02	.40
Communication	78.6	21.0	83.3	33.3	0.6	30.1	-0.97	0.56	---
C25	80.9	24.7	100.0	25.0	1.8	53.6	-1.20	0.81	.37
C26	80.7	24.5	100.0	25.0	1.8	52.7	-1.19	0.83	.42
C27	74.2	30.2	75.0	50.0	5.4	47.0	-0.95	-0.11	.31

Note. SD = standard deviation. IQR = interquartile range.

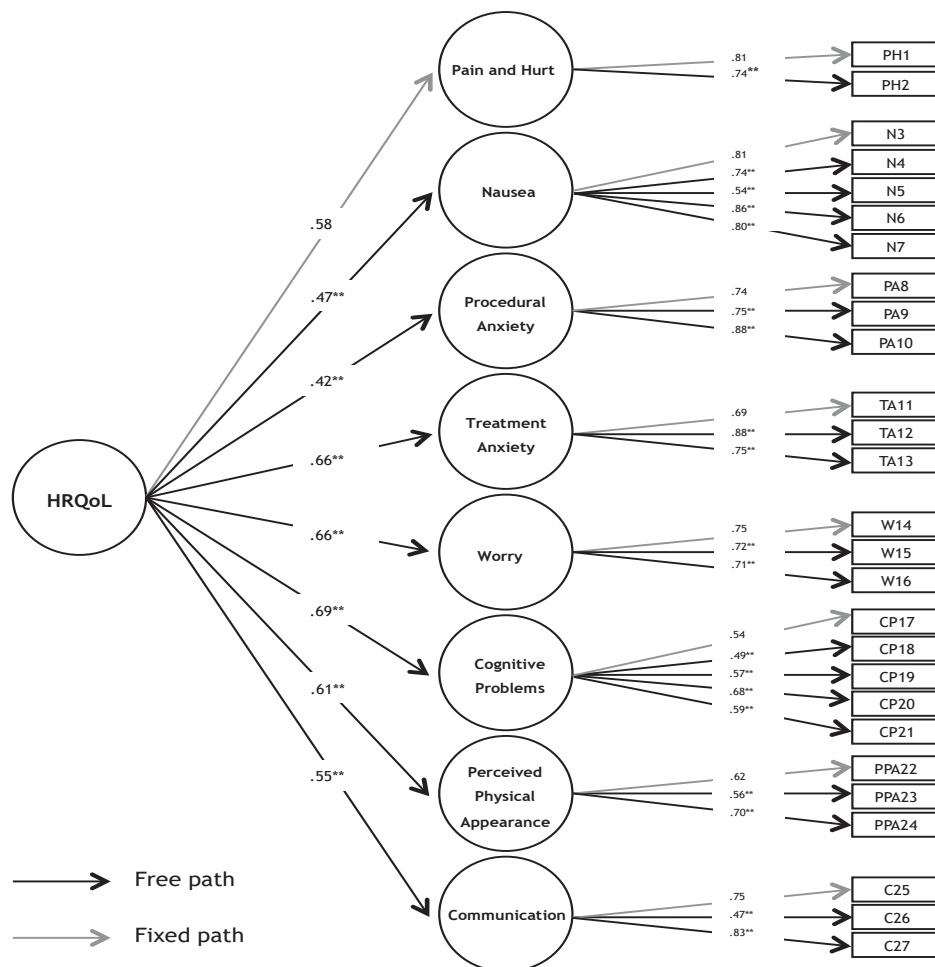


Figure 1. Fit indexes for the model: $\chi^2_{316} = 590.80$; $p < .001$; CFI = .91; RMSEA = .05. Values shown in the figure represent completely standardized regression weights of the factor loadings.
 ** $p < .01$

Table 3. Convergent validity of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module

	DCGM-12 ^a			RCMAS-2 ^a		
	Whole sample (N = 332)	Children (n = 143)	Adolesc (n = 189)	Whole sample (N = 332)	Children (n = 143)	Adolesc (n = 189)
Total score	.58**	.61**	.56**	-.51**	-.46**	-.56**
Pain and Hurt	.46**	.34**	.55**	-.33**	-.26**	-.40**
Nausea	.43**	.42**	.44**	-.16**	-.14	-.18**
Procedural Anxiety	.17**	.21**	.15*	-.17**	-.09	-.26**
Treatment Anxiety	.29**	.35**	.26**	-.29**	-.26**	-.33**
Worry	.34**	.37**	.34**	-.32**	-.36**	-.33**
Cognitive Problems	.39**	.43**	.36**	-.44**	-.40**	-.48**
Perceived Physical Appearance	.35**	.33**	.37**	-.45**	-.40**	-.52**
Communication	.32**	.37**	.28**	-.37**	-.31**	-.43**

Note. Adolesc = adolescents. ^aPearson correlations coefficients. ** $p \leq .01$. * $p < .05$.

Table 4. Internal Consistency and Test-retest Reliability of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module

	Internal Consistency ^a			Test-Retest Reliability (one-week) ^b		
	Whole sample (N = 332)	Children (n = 143)	Adolesc (n = 189)	Whole sample (N = 52)	Children (n = 22)	Adolesc (n = 30)
Total score	.87	.83	.89	.79**	.70**	.83**
Pain and Hurt	.75	.58	.85	.61**	.54**	.63**
Nausea	.86	.79	.90	.78**	.78**	.78**
Procedural Anxiety	.82	.78	.87	.81**	.76**	.86**
Treatment Anxiety	.80	.68	.87	.72**	.89**	.63**
Worry	.77	.69	.81	.76**	.68**	.79**
Cognitive Problems	.70	.61	.77	.77**	.48**	.87**
Perceived Physical Appearance	.65	.49	.75	.81**	.85**	.78**
Communication	.70	.69	.70	.74**	.74**	.75**

Note. Adolesc = Adolescents. ^aCronbach's alpha; ^bIntraclass correlation coefficients. ** $p \leq .01$.

Discussion

The aim of this study was to assess the psychometric properties of the European Portuguese version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module for children and adolescents. The findings supported the factorial structure and the convergent validity. Overall, results also suggested good internal consistency and temporal stability.

The absence of missing data suggested that children and adolescents were willing and able to provide data. Similar to other versions [e.g. 14-16, 20] there was a tendency for ceiling effect for the subscales and items. This tendency has been reported in other studies concerning the measurement of HRQoL for children/adolescents with cancer [40]. The inclusion of children/adolescents that were off-treatment may have potentially accentuated the ceiling effects [20]. This study increases current knowledge by showing that total scores and all subscales of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module were normally distributed, a trend that has been reported in other studies [14, 15]. In addition, similar to the Brazilian version [17], item-total correlations demonstrated good item discrimination.

Although the PedsQL™ 3.0 Cancer Module has been translated into 25 languages and some psychometric properties of these versions have been reported [e.g., 14, 15, 16], to our knowledge, this is the first study to analyze the factorial structure of this instrument via CFA. In accordance with the factorial structure proposed by the original authors [13], the CFA indicated a second-order factorial model and determined that the eight first-order factors are structurally related and consistent indicators of a higher level construct, that is, the HRQoL.

The correlations between the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the DCGM-12, and the RCMAS-2 scores attested the convergent validity. The medium to large correlations between the two instruments, that measure the HRQoL, were similar compared to the original version [13], the Japanese version [15] and the Chinese version [14] that compared the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the PedsQL™ 4.0 Generic Core Scales.

The unique contributions of our study, compared with previous research with the PedsQL™ 3.0 Cancer Module [13-17], are that the data are presented separately for each age group and that the other scale that assessed the HRQoL (DCGM-12) was not derived from the same theoretical framework. In addition, the majority of the correlations between the PedsQL™ 3.0 Cancer Module and the RCMAS-2 scores were also medium to large, with the exception of the children's reports of Nausea and Procedural Anxiety. However, the items of the RCMAS-2 are more oriented for physiological anxiety, worry, and social anxiety [23] and not for the physical side effects of cancer treatment (e.g., nausea, dysgeusia) or for the anxiety related to procedures (e.g., injections, blood tests, intravenous therapy).

With regard to reliability, PedsQL™ 3.0 Cancer Module exceeded the minimally acceptable internal consistency cut-point, with the exception of the Pain and Hurt, Cognitive Problems, and Perceived Physical Appearance subscales in the self-reports of children. Similar to these findings, others studies have also demonstrated poor internal consistency for one or all aforementioned subscales [13, 17]. The low reliability of these subscales identified across countries may be related to their small number of items [41] and also to children's learning difficulties, which may mirror the cognitive and neuropsychological effects of the treatment and the high rate of absenteeism [42]. Although, in Portugal, the education of youth with cancer is protected by Law (No. 71/2009 of August 6th) [43] with school support being available upon request at home and at the hospital, the treatment for pediatric cancer can often interrupt regular school attendance, that might be more critical for the children's group.

Finally, total score and all subscales demonstrated good to excellent test-retest reliability, with the exception of two subscales for children. Similar to Lau et al. [14], one of the only two studies presenting the test-retest reliability for this age group, the subscales Pain and Hurt and Cognitive Problems (for children) presented moderate test-retest reliability values. However, the children/adolescents who participated in the test-retest were undergoing treatment at the time of the study. Thus, the low values in the aforementioned subscales may reflect changes over the previous week (e.g., treatment side effects, outpatient or inpatient treatment, interrupt homebound services) or impact due to a specific situation (e.g., blood test, lumbar punctures) [44]. With few exceptions, however, the overall results suggest that the Portuguese version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module is stable over time.

The strengths of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module include the sound theoretical background, the inclusion of the child-centered features, that is, important domains of a child's life, which enables the child to assess his/her own HRQoL taking into account his/her developmental stage [45] according to the guidelines in this field [46, for a review]. A strength of this specific study is its large sample size, which allowed for analyzing the convergent validity and reliability of this measure separately for children and adolescents. Additionally, this was the first study to conduct the factorial validity

of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module via CFA, providing empirical support for the original model proposed by the original authors of this scale.

The current study also presents potential limitations. First, the sample collection was conducted in three of the four-oncology centers in Portugal. Although it is unlikely that regional differences may influence how children/adolescents perceive the impact of cancer on their own HRQoL, generalizations should be made with caution. Second, we did not control for the treatments and their side effects, and school support over the two assessment moments. Third, an analysis of the parents' proxy-reports was not conducted. Future research should inspect the psychometric properties of parents' proxy-reports and the agreement between the parents' proxy-reports and the children/adolescents' self-reports. Moreover, future studies with a larger sample should analyze whether the factorial structure remains valid across groups of children and adolescents and across on- and off-treatment status.

Conclusion

This approach enlarged the potential use of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module in future research by demonstrating the validity of assessing both a general HRQoL factor and the eight specific subscales provided by each subscale. The study established that the European Portuguese version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module for child and adolescent self-report was a reliable and valid measurement instrument to assess children/adolescent reports of HRQoL, thereby expanding the potential for cross-cultural applications of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module.

Additional file

Additional file 1: The Portuguese and the English originals versions of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module: Child report (ages 8-12) and Teen report (ages 13-18).

Competing interests. The authors declare that they have no competing interests.

Authors' contributions

SS carried out the collected sample, participated in the design of the study, participated in literature search, performed the statistical analysis and wrote all of the content. CC participated in the design of the study and coordination, performed the statistical analysis and wrote part of the content. MCC participated in its design and coordination, helped to draft the manuscript, and did critical revision of manuscript. AF, LB, DdC, and AP participated in its design and did critical revision of manuscript. All authors read and approved the final manuscript.

Acknowledgement

The authors would like to thank the Pediatrics Services of the Portuguese Institute of Oncology (IPO-Porto) and São João Hospital, both located in Porto, and the Pediatric Department, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra in Coimbra healthcare professionals, as well as all of the children/ adolescents and their family caregivers who agreed to participate in this research project.

This research was supported by a PhD scholarship (SFRH/BD/80777/2011) from the Portuguese Foundation for Science and Technology to the first author. Correspondence concerning this article should be addressed to Susana Santos, Faculty of Psychology and Educational Sciences, University of Coimbra, Rua do Colégio Novo, Apartado 6153, 3001-802 Coimbra, Portugal. E-mail: susanafernandessantos@gmail.com

References

1. WHOQOL Group. The World Health Organization quality of life assessment (WHOQOL): Development and general psychometric properties. *Soc Sci Med.* 1998;46:1569-85.
2. Michaud PA, Suris JC, Viner R. The adolescent with a chronic condition: Epidemiology, developmental issues and health care provision. Geneva: World Health Organization; 2007.
3. Scheurer ME, Bondy ML, Gurney JG. Epidemiology of childhood cancer. In: Pizzo AP, Poplack DG, editors. Principles and practices of pediatric oncology. 6th ed. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins; 2010. p. 2-16.
4. Gurney JG, Bondy ML. Epidemiology of childhood and adolescent cancer. In: Behrman RE, Kliegman RM, Jenson HB, editors. Nelson textbook of pediatrics. 17th ed. Philadelphia: Saunders; 2004. p. 1679-81.
5. Varni JW, Katz ER, Seid M, Quiggin DJ, Friedman-Bender A. The pediatric cancer quality of life inventory-32 (PCQL-32): I. Reliability and validity. *Cancer.* 1998;82:1184-96.
6. Revicki DA. Health-related quality of life in the evaluation of medical therapy for chronic illness. *J Fam Pract.* 1989;29:377-80.
7. Speechley KN, Barrera M, Shaw AK, Morrison HI, Maunsell E. Health-related quality of life among child and adolescent survivors of childhood cancer. *J Clin Oncol.* 2006;24:2536-43.
8. Varni JW, Limbers C, Burwinkle TM. Literature review: Health-related quality of life measurement in pediatric oncology: Hearing the voices of the children. *J Pediatr Psychol.* 2007;32:1151-63.
9. Levi RB. Quality of life in childhood cancer: Meaning, methods, and missing pieces. In: Brown R, editor. Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell

- disease: A biopsychosocial approach. New York: Oxford University Press; 2006. p. 170-88.
10. Klassen AF, Strohm SJ, Maurice-Stam H, Grootenhuis MA. Quality of life questionnaires for children with cancer and childhood cancer survivors: A review of the development of available measures. *Support Care Cancer*. 2010;18:1207-17.
 11. Klassen AF, Anthony SJ, Khan A, Sung L, Klaassen R. Identifying determinants of quality of life of children with cancer and childhood cancer survivors: A systematic review. *Support Care Cancer*. 2011;19:1275-87.
 12. Byrne BM. *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts applications and programming*. 2nd ed. New York: Routledge; 2010.
 13. Varni JW, Burwinkle TM, Katz ER, Meeske K, Dickinson P. The PedsQL™ in pediatric cancer reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory™ Generic Core Scales, Multidimensional Fatigue Scale, and Cancer Module. *Cancer*. 2002;94:2090-106.
 14. Lau JT, Yu XN, Chu Y, Shing MM, Wong EM, Leung TF, et al. Validation of the Chinese version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ (PedsQL™) Cancer Module. *J Pediatr Psychol*. 2010;35:99-109.
 15. Tsuji N, Kakee N, Ishida Y, Asami K, Tabuchi K, Nakadate H, et al. Validation of the Japanese version of the Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL) cancer module. *Health Qual Life Outcomes*. 2011;9:22.
 16. Ji Y, Chen S, Li K, Xiao N, Yang X, Zheng S, et al. Measuring health-related quality of life in children with cancer living in mainland China: Feasibility, reliability and validity of the Chinese mandarin version of PedsQL 4.0 Generic Core Scales and 3.0 Cancer Module. *Health Qual Life Outcomes*. 2011;9:103.
 17. Scarpelli AC, Paiva SM, Pordeus IA, Ramos-Jorge ML, Varni JW, Allison PJ. Measurement properties of the Brazilian version of the Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL™) cancer module scale. *Health Qual Life Outcomes*. 2008;6:7.
 18. Felder-Puig R, Frey E, Proksch K, Varni JW, Gadner H, Topf R. Validation of the German version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ (PedsQL™) in childhood cancer patients off treatment and children with epilepsy. *Qual Life Res*. 2004;13:223-34.
 19. Mapi Research Institute: Linguistic validation of the PedsQL™: A quality of life questionnaire. 2002. <http://www.google.pt/url?sa=t&rct=j&q=&esrc=s&source=web&cd=1&ved=0ahUKEwi1lfjy5uLKAhUL2xoKHStCA0QFggjMAA&url=http%3A%2F%2Fwww.pedsq.org%2FPedsQLLinguistic-ValidationGuidelines.doc&usq=AFQjCNGZ3tDOg0BcEZ5RxvMI4ZVSrcUPpA&sig2=sGuX1C0xHkeuzw1pDwjKUQ>.

20. Varni JW, Seid M, Rode CA. The PedsQL™: Measurement model for the Pediatric Quality of Life Inventory. *Med Care*. 1999;37:126-39.
21. European DISABKIDS Group. The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions. Lengerich: Pabst Science Publishers; 2006.
22. Muehlan H. Developing the DCGM-12: A short-form of the DISABKIDS condition-generic module assessing health related quality of life in children and adolescents with chronic conditions. Germany: University of Hamburg; 2010.
23. Reynolds CR, Richmond BO. RCMAS-2-Revised children's manifest anxiety scale. 2nd ed. Los Angeles: Western Psychological Services; 2008.
24. Kazak AE, Hocking MC, Ittenbach RF, Meadows AT, Hobbie W, DeRosa BW, et al. A revision of the Intensity of Treatment Rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatr Blood Cancer*. 2012;59:96-9.
25. Santos S, Crespo C, Canavarro MC, Pinto A. Intensidade do tratamento e qualidade de vida relacionada com a saúde no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 [Intensity of treatment and health-related quality of life in pediatric cancer: Findings from the Portuguese version of Intensity of Treatment Rating Scale 3.0]. *Psychol Commun & Health*. 2014;3:158-71.
26. Simões MR: Investigações no âmbito da Aferição Nacional do Teste das Matrizes Progressivas Coloridas de Raven [Raven's Progressive Matrices: Portuguese aferition studies]. Faculty of Psychology and Educational Science, University of Coimbra, Coimbra, Portugal; 1994.
27. McHorney CA, Tarlov AR. Individual-patient monitoring in clinical practice: Are available health status. *Qual Life Res*. 1995;4:293-307.
28. Terwee CB, Bot SD, Boer MR, Windt DA, Knol DL, Dekker J, et al. Quality criteria were proposed for measurement properties of health status. *Clin Epidemiol*. 2007;60:34-42.
29. Kim H-Y. Statistical notes for clinical researchers: Assessing normal distribution (2) using skewness and kurtosis. *Restor Dent Endod*. 2013;38:52-4.
30. West SG, Finch JF, Curran PJ. Structural equation models with non-normal variables: Problems and remedies. In: Hoyle R, editor. *Structural equation modeling: Concepts, issues, and applications*. Thousand Oaks: Sage; 1995. p. 56-75.
31. Nunnally JC, Bernstein I. *Psychometric theory*. 3rd ed. New York: McGraw-Hill; 1994.

32. Stevens JP. Applied multivariate statistics for the social sciences. 5th ed. New York: Routledge Taylor & Francis Group; 2009.
33. Kline RB. Principles and practice of structural equation modeling. 2nd ed. New York: The Guilford Press; 2005.
34. Little TD. Longitudinal Structural Equation Modeling. New York: The Guilford Press; 2013.
35. DeVellis RF. Scale development: Theory and applications. 3rd ed. Thousand Oaks: Sage Publications; 2012.
36. Streiner DL, Norman GR. Health measurement scales: A practical guide to their development and use. New York: Oxford University Press; 2008.
37. Cronbach LJ. Coefficient alpha and the internal structure of tests. *Psychometrika*. 1951;16:297-334.
38. Bartko JJ. The intraclass correlation coefficient as a measure of reliability. *Psychol Rep*. 1966;19:3-11.
39. Cohen J. A power primer. *Psychol Bull*. 1992;112:155-9.
40. Phipps S, Hinds PS, Channell S, Bell GL. Measurement of behavioral, affective, and somatic responses to pediatric bone. *J Pediatr Oncol Nurs*. 1994;11:109-17.
41. Hair JF, Anderson RE, Tatham RL, Black WC. Multivariate data analysis. 5thed. London: Prentice-Hall International; 1998.
42. Toro A: Public interest government relations office: Psychological impact of childhood cancer. Public Interest Government Relations Office, American Psychological Association; n. d. <https://www.apa.org/pi/families/resources/childhood-cancer-fact-sheet.pdf>.
43. República Ad: Lei no 71/2009 de 6 de agosto. [Law No. 71/2009 of August 6th]. *Diário da República*, 1.a série. 151, 5100-5102. 2009, agosto, 6.
44. Bowling A. Measuring health: A review of quality of life measurement scales. 2nd ed. Buckingham: Open University Park; 1997.
45. Varni JW, Limbers CA. The pediatric quality of life inventory: Measuring pediatric health-related quality of life from the perspective of children and their parents. *Pediatr Clin North Am*. 2009;56:843-63.
46. Davis E, Waters E, Mackinnon A, Reddihough D, Graham HK, Mehmet-Radji O, et al. Paediatric quality of life instruments: A review of the impact of the conceptual framework on outcomes. *Dev Med Child Neurol*. 2006;48:311-8.

Additional File 1

The Portuguese and the English original versions of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module: Child report (ages 8-12) and Teen report (ages 13-18).

PedsQL™

Módulo do Cancro

Versão 3.0

Relato da Criança (8-12 anos)

INSTRUÇÕES

Por vezes, crianças com cancro têm alguns problemas. Por favor, diz-nos **até que ponto** cada uma destas situações tem sido um problema para ti durante o **último mês**. Por favor, assinala a tua resposta com um círculo à volta de uma das opções:

- 0 se **nunca** é um problema
- 1 se **quase nunca** é um problema
- 2 se **algumas vezes** é um problema
- 3 se **muitas vezes** é um problema
- 4 se **quase sempre** é um problema

Não há respostas certas ou erradas.

Se não entenderes uma pergunta, por favor pede ajuda.

Durante o **último mês**, até que ponto tem sido um problema para ti

DOR (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dores nas articulações e/ou músculos.	0	1	2	3	4
2	Tenho muitas dores.	0	1	2	3	4

NÁUSEA (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Fico enjoado quando tenho tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
2	A comida não me sabe muito bem.	0	1	2	3	4
3	Fico enjoado quando penso nos tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
4	Sinto-me demasiado enjoado para comer.	0	1	2	3	4
5	Algumas comidas e cheiros enjoam-me.	0	1	2	3	4

ANSIEDADE NOS PROCEDIMENTOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	As picadas (ex: injeções, colheitas de sangue, endovenosas) doem-me.	0	1	2	3	4
2	Fico com medo quando tenho de tirar sangue.	0	1	2	3	4
3	Fico com medo quando tenho de ser picado (ex: injeções, colheitas de sangue, endovenosas).	0	1	2	3	4

ANSIEDADE NOS TRATAMENTOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Fico com medo quando estou à espera do médico.	0	1	2	3	4
2	Fico com medo quando tenho de ir ao médico.	0	1	2	3	4
3	Fico com medo quando tenho de ir ao hospital.	0	1	2	3	4

PREOCUPAÇÃO (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Preocupo-me com os efeitos secundários dos tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
2	Preocupo-me se os tratamentos médicos estão ou não a resultar.	0	1	2	3	4
3	Preocupo-me se o cancro vai voltar ou recidivar.	0	1	2	3	4

PROBLEMAS COGNITIVOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dificuldade em saber o que fazer quando alguma coisa me incomoda.	0	1	2	3	4
2	Tenho dificuldade em resolver problemas de matemática.	0	1	2	3	4
3	Tenho dificuldade em fazer trabalhos escritos ou relatórios para a escola.	0	1	2	3	4
4	Tenho dificuldade em prestar atenção às coisas.	0	1	2	3	4
5	Tenho dificuldade em lembrar-me do que leio.	0	1	2	3	4

Durante o **último mês**, até que ponto tem sido um problema para ti

PERCEÇÃO DA APARÊNCIA FÍSICA (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Sinto que não sou bonito.	0	1	2	3	4
2	Não gosto que outras pessoas vejam as minhas cicatrizes.	0	1	2	3	4
3	Fico envergonhado quando outras pessoas veem o meu corpo.	0	1	2	3	4

COMUNICAÇÃO (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dificuldade em dizer aos médicos e enfermeiros o que sinto.	0	1	2	3	4
2	Tenho dificuldade em fazer perguntas aos médicos e enfermeiros.	0	1	2	3	4
3	Tenho dificuldade em explicar a minha doença a outras pessoas.	0	1	2	3	4

Review Copy
Do not use without permission

PedsQL™

Módulo do Cancro

Versão 3.0

Relato do Jovem (13-18 anos)

INSTRUÇÕES

Por vezes, crianças/jovens com cancro têm alguns problemas. Por favor, diz-nos **até que ponto** cada uma destas situações tem sido um problema para ti durante o **último mês**. Por favor, assinala a tua resposta com um círculo à volta de uma das opções:

- 0 se **nunca** é um problema
- 1 se **quase nunca** é um problema
- 2 se **algumas vezes** é um problema
- 3 se **muitas vezes** é um problema
- 4 se **quase sempre** é um problema

Não há respostas certas ou erradas.

Se não entenderes uma pergunta, por favor pede ajuda.

Durante o **último mês**, até que ponto tem sido um problema para ti

DOR (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dores nas articulações e/ou músculos.	0	1	2	3	4
2	Tenho muitas dores.	0	1	2	3	4

NÁUSEA (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Fico enjoado quando tenho tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
2	A comida não me sabe muito bem.	0	1	2	3	4
3	Fico enjoado quando penso nos tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
4	Sinto-me demasiado enjoado para comer.	0	1	2	3	4
5	Algumas comidas e cheiros enjoam-me.	0	1	2	3	4

ANSIEDADE NOS PROCEDIMENTOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	As picadas (ex: injeções, colheitas de sangue, endovenosas) doem-me.	0	1	2	3	4
2	Fico com medo quando tenho de tirar sangue.	0	1	2	3	4
3	Fico com medo quando tenho de ser picado (ex: injeções, colheitas de sangue, endovenosas).	0	1	2	3	4

ANSIEDADE NOS TRATAMENTOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Fico com medo quando estou à espera do médico.	0	1	2	3	4
2	Fico com medo quando tenho de ir ao médico.	0	1	2	3	4
3	Fico com medo quando tenho de ir ao hospital.	0	1	2	3	4

PREOCUPAÇÃO (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Preocupo-me com os efeitos secundários dos tratamentos médicos.	0	1	2	3	4
2	Preocupo-me se os tratamentos médicos estão ou não a resultar.	0	1	2	3	4
3	Preocupo-me se o cancro vai voltar ou recidivar.	0	1	2	3	4

PROBLEMAS COGNITIVOS (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dificuldade em saber o que fazer quando alguma coisa me incomoda.	0	1	2	3	4
2	Tenho dificuldade em resolver problemas de matemática.	0	1	2	3	4
3	Tenho dificuldade em fazer trabalhos escritos ou relatórios para a escola.	0	1	2	3	4
4	Tenho dificuldade em prestar atenção às coisas.	0	1	2	3	4
5	Tenho dificuldade em lembrar-me do que leio.	0	1	2	3	4

Durante o **último mês**, até que ponto tem sido um problema para ti

PERCEÇÃO DA APARÊNCIA FÍSICA (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Sinto que não sou bonito.	0	1	2	3	4
2	Não gosto que outras pessoas vejam as minhas cicatrizes.	0	1	2	3	4
3	Fico envergonhado quando outras pessoas veem o meu corpo.	0	1	2	3	4

COMUNICAÇÃO (problemas com...)		Nunca	Quase nunca	Algumas vezes	Muitas vezes	Quase sempre
1	Tenho dificuldade em dizer aos médicos e enfermeiros o que sinto.	0	1	2	3	4
2	Tenho dificuldade em fazer perguntas aos médicos e enfermeiros.	0	1	2	3	4
3	Tenho dificuldade em explicar a minha doença a outras pessoas.	0	1	2	3	4

Review Copy
Do not use without permission

ID# _____
Date: _____

PedsQLTM

Cancer Module

Version 3.0

CHILD REPORT (ages 8-12)

DIRECTIONS

Children with cancer sometimes have special problems. Please tell us **how much of a problem** each one has been for you during the **past one month** by circling:

- 0 if it is **never** a problem
- 1 if it is **almost never** a problem
- 2 if it is **sometimes** a problem
- 3 if it is **often** a problem
- 4 if it is **almost always** a problem

There are no right or wrong answers.
If you do not understand a question, please ask for help.

In the past one month, how much of a problem has this been for you

PAIN AND HURT (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I ache or hurt in my joints and/or muscles	0	1	2	3	4
2. I hurt a lot	0	1	2	3	4

NAUSEA (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I become sick to my stomach when I have medical treatments	0	1	2	3	4
2. Food does not taste very good to me	0	1	2	3	4
3. I become sick to my stomach when I think about medical treatments	0	1	2	3	4
4. I feel too sick to my stomach to eat	0	1	2	3	4
5. Some foods and smells make me sick to my stomach	0	1	2	3	4

PROCEDURAL ANXIETY (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. Needle sticks (i.e. injections, blood tests, IV's) hurt	0	1	2	3	4
2. I get scared when I have to have blood tests	0	1	2	3	4
3. I get scared about having needle sticks (i.e. injections, blood tests, IV's)	0	1	2	3	4

TREATMENT ANXIETY (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I get scared when I am waiting to see the doctor	0	1	2	3	4
2. I get scared when I have to go to the doctor	0	1	2	3	4
3. I get scared when I have to go to the hospital	0	1	2	3	4

WORRY (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I worry about side effects from medical treatments	0	1	2	3	4
2. I worry about whether or not my medical treatments are working	0	1	2	3	4
3. I worry that my cancer will come back or relapse	0	1	2	3	4

COGNITIVE PROBLEMS (problems with)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. It is hard for me to figure out what to do when something bothers me	0	1	2	3	4
2. I have trouble solving math problems	0	1	2	3	4
3. I have trouble writing school papers or reports	0	1	2	3	4
4. It is hard for me to pay attention to things	0	1	2	3	4
5. It is hard for me to remember what I read	0	1	2	3	4

In the past one month, how much of a problem has this been for you

PedsQL 3

PERCEIVED PHYSICAL APPEARANCE (problems with)	Never	Almost Never	Some- times	Often	Almost Always
1. I feel I am not good looking	0	1	2	3	4
2. I don't like other people to see my scars	0	1	2	3	4
3. I am embarrassed when others see my body	0	1	2	3	4

COMMUNICATION (problems with)	Never	Almost Never	Some- times	Often	Almost Always
1. It is hard for me to tell the doctors and nurses how I feel	0	1	2	3	4
2. It is hard for me to ask the doctors and nurses questions	0	1	2	3	4
3. It is hard for me to explain my illness to other people	0	1	2	3	4

Review copy
Do not use without permission

ID# _____
Date: _____

PedsQLTM

Cancer Module

Version 3.0

TEEN REPORT (ages 13-18)

DIRECTIONS

Teens with cancer sometimes have special problems. Please tell us **how much of a problem** each one has been for you during the **past one month** by circling:

- 0 if it is **never** a problem
- 1 if it is **almost never** a problem
- 2 if it is **sometimes** a problem
- 3 if it is **often** a problem
- 4 if it is **almost always** a problem

There are no right or wrong answers.
If you do not understand a question, please ask for help.

*In the past **one month**, how much of a **problem** has this been for you ...*

PedsQL 2

PAIN AND HURT (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I ache or hurt in my joints and/or muscles	0	1	2	3	4
2. I hurt a lot	0	1	2	3	4

NAUSEA (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I become sick to my stomach when I have medical treatments	0	1	2	3	4
2. Food does not taste very good to me	0	1	2	3	4
3. I become sick to my stomach when I think about medical treatments	0	1	2	3	4
4. I feel too sick to my stomach to eat	0	1	2	3	4
5. Some foods and smells make me sick to my stomach	0	1	2	3	4

PROCEDURAL ANXIETY (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. Needle sticks (i.e. injections, blood tests, IV's) hurt	0	1	2	3	4
2. I get scared when I have to have blood tests	0	1	2	3	4
3. I get scared about having needle sticks (i.e. injections, blood tests, IV's)	0	1	2	3	4

TREATMENT ANXIETY (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I get scared when I am waiting to see the doctor	0	1	2	3	4
2. I get scared when I have to go to the doctor	0	1	2	3	4
3. I get scared when I have to go to the hospital	0	1	2	3	4

WORRY (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. I worry about side effects from medical treatments	0	1	2	3	4
2. I worry about whether or not my medical treatments are working	0	1	2	3	4
3. I worry that my cancer will come back or relapse	0	1	2	3	4

COGNITIVE PROBLEMS (problems with...)	Never	Almost Never	Sometimes	Often	Almost Always
1. It is hard for me to figure out what to do when something bothers me	0	1	2	3	4
2. I have trouble solving math problems	0	1	2	3	4
3. I have trouble writing school papers or reports	0	1	2	3	4
4. It is hard for me to pay attention to things	0	1	2	3	4
5. It is hard for me to remember what I read	0	1	2	3	4

In the past **one month**, how much of a **problem** has this been for you ...

PedsQL 3

PERCEIVED PHYSICAL APPEARANCE (problems with...)	Never	Almost Never	Some- times	Often	Almost Always
1. I feel I am not good looking	0	1	2	3	4
2. I don't like other people to see my scars	0	1	2	3	4
3. I am embarrassed when others see my body	0	1	2	3	4

COMMUNICATION (problems with...)	Never	Almost Never	Some- times	Often	Almost Always
1. It is hard for me to tell the doctors and nurses how I feel	0	1	2	3	4
2. It is hard for me to ask the doctors and nurses questions	0	1	2	3	4
3. It is hard for me to explain my illness to other people	0	1	2	3	4

Review copy
Do not use without permission

Secção III | Family rituals and quality of life in children with cancer and their parents: The role of family cohesion and hope

[História e contributo do Estudo III]

Neste terceiro estudo, o foco incidiu na identificação de correlatos familiares e individuais da adaptação de pais (QdV) e de crianças (QdVrS específica). Os rituais familiares e a esperança associados a resultados de saúde e bem-estar não tinham sido até aqui investigados no contexto do cancro pediátrico, onde se parecem revelar particularmente significativos. A literatura sobre os rituais familiares tem demonstrado que este componente do funcionamento familiar influencia a QdVrS de crianças diagnosticadas com uma condição crónica de saúde (para uma revisão, consultar Crespo et al., 2013). Embora exista um corpo crescente de literatura sobre os efeitos positivos dos rituais familiares na QdVrS, pouca atenção tem sido dada ao estudo dos mecanismos subjacentes entre estas associações. Além disso, devido ao foco predominante das investigações num dos elementos da família (habitualmente nos pais), existem lacunas na investigação no que respeita às influências entre ambos os elementos da díade (i.e., *efeitos do parceiro*). Face à inexistência de estudos no cancro pediátrico, e procurando contribuir para o conhecimento atual sobre os processos de adaptação de crianças diagnosticadas com cancro e seus pais, conduzimos o **Estudo III**.

Aqui utilizámos uma abordagem mais compreensiva assente no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989) e no modelo transacional (Fiese & Sameroff, 1989; Sameroff & Chandler, 1975) para compreender a influência dos rituais familiares na QdV/QdVrS, especificamente para compreender os mecanismos que explicam esta relação. De acordo com estes referenciais teóricos, o estudo da adaptação exige que se considere a influência de múltiplos fatores que operam em diferentes níveis sistémicos, bem como os mecanismos de influência que ocorrem entre pais e crianças. A opção estatística adequada para testar estes mecanismos foi o uso de um modelo de mediação diádico. Adicionalmente, este estudo, numa possibilidade alicerçada no tamanho da amostra, testou a invariância dos mecanismos encontrados de acordo com o grupo etário do paciente (criança vs. adolescente), as fases do cancro pediátrico (fase de tratamento vs. fase de pós-tratamento) e o nível socioeconómico da família (baixo vs. médio-elevado).

Os resultados deste estudo podem ser especialmente relevantes para a prática clínica, na medida em que poderão contribuir para uma melhor compreensão sobre quais os determinantes que contribuem para a adaptação individual e quais os mecanismos subjacentes. Intervir ao nível da família como um todo através das “portas” do sistema como os rituais familiares e a coesão e da “porta” individual da esperança parecem ser possibilidades apoiadas pelos resultados deste estudo empírico.

Family Rituals and Quality of Life in Children With Cancer and Their Parents: The Role of Family Cohesion and Hope

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Anne E. Kazak³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children's Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, Sidney Kimmel Medical College of Thomas Jefferson University

Abstract

Objective: Family rituals are associated with adaptive functioning in pediatric illness, including quality of life (QoL). This article explores the role of family cohesion and hope as mediators of this association in children with cancer and their parents. **Methods:** Portuguese children with cancer ($N = 389$), on- and off-treatment, and one of their parents completed self-report measures. Structural equation modeling was used to examine direct and indirect links between family rituals and QoL. **Results:** When children and parents reported higher levels of family rituals, they also reported more family cohesion and hope, which were linked to better QoL. At the dyadic level, children's QoL was related to parents' family rituals through the child's family cohesion. This model was valid across child's age-group, treatment status, and socioeconomic status. **Conclusions:** Family rituals are important in promoting QoL in pediatric cancer via family cohesion and hope individually and via family cohesion in terms of parent-child interactions.

Key words: Families; Hope; Parents; Pediatric cancer; Quality of life.

Introduction

Quality of life (QoL) is a widely accepted outcome in pediatric cancer that is helpful in understanding the impact of these illnesses and treatments on children and families. Decreased QoL is understandable and even expected, particularly during treatment, and may persist after treatment ends (Klassen, Anthony, Khan, Sung, & Klaassen, 2011; Klassen et al., 2007). An understanding of QoL can be enhanced by examining child adjustment in the context of social-ecological (Kazak, 1989) and transactional models (Fiese & Sameroff, 1989) of development, frameworks that highlight the contextual (e.g., family environment) and dynamic mutual effects between children and parents that take place across time.

Family rituals are special events, such as celebrations, traditions, and patterned family interactions, with a symbolic meaning shared by the whole family; these events are examples of family functioning that may be associated with QoL (Fiese et al., 2002). Family rituals have been linked with positive outcomes, such as psychological functioning, adherence to treatment, and health-related behaviors (Crespo et al., 2013; Fiese, 2006; Fiese et al., 2002). Studies in community samples found that family ritual meaning was positively associated with adolescents' identity, feelings of security (Fiese, 2006), and predicted well-being over 1 year (Crespo, Kielpikowski, Pryor, & Jose, 2011). In pediatric asthma, mothers' family ritual meaning was associated with less anxiety in the child (Markson & Fiese, 2000). Although positive links between family rituals and children's health outcomes have been consistently supported, the underlying pathways for these associations are not known.

One possible pathway is family cohesion, a characteristic of families known to be associated with positive child outcomes. Fiese et al. (2002) concluded that when family rituals are interrupted, family cohesion is threatened. In addition, research suggested that children with cancer undergoing treatment with positive family functioning (e.g., high cohesion) were more likely to report better psychological adjustment and QoL (Barakat, Marmer, & Schwartz, 2010; Klassen et al., 2007). Family rituals can provide organization and increase cohesion by strengthening family ties (Crespo et al., 2013; Fiese, 2006; Fiese et al., 2002) that can be important resources to manage the disease, encourage adherence to treatment, and promote adaptive parenting. Parents' family ritual meaning was connected to adolescents' well-being through both adolescents' and parents' perceptions of family cohesion in a community sample in New Zealand (Crespo et al., 2011). Additionally, Santos, Crespo, Silva, and Canavarro (2012) have demonstrated that family ritual meaning reported by children with asthma was linked to better QoL and to less emotional and behavioral problems, via less conflictual and more cohesive family environments. Together, these data suggest that family ritual meaning promotes better adaptation, and that family cohesion can be a possible path via which this positive influence takes place.

A second possible pathway involves hope. Hope is an overall perception that one's goals can be met (Snyder et al., 1997), a characteristic that is particularly salient in the face

of obstacles or impediments. Family integration can foster optimism (Blotcky, Raczynski, Gurwitch, & Smith, 1985) and hope (Shorey, Snyder, Yang, & Lewin, 2003). According to Snyder (2002), a family environment that lacks boundaries, support, and consistency jeopardizes the development of hopeful thinking. Family ritual meaning may be one way to provide family members the necessary structure and support to develop goal-directed actions. Family rituals allow recognizing past legacies, interpreting the present, and looking to the future for hope (Fiese, 2006). Positive expectations and hope promote adaptation to diagnosis and treatment in adolescents (Hinds et al., 1999). Another study of youth with cancer found a positive relationship between hope and satisfaction with life (Hexdall & Huebner, 2007). Hope can buffer the relationship between disability-related stress and adjustment in mothers of children with chronic physical condition (Horton & Wallander, 2001). A more hopeful family might perceive cancer, its treatment, and long-term consequences as challenges to overcome rather than a threat/fatality (Irving, Snyder, & Crowson, 1998). Hence, the family might generate more diverse or helpful coping strategies (Irving et al., 1998) that can translate into better adaptation.

The interdependence of the members of family dyads has been increasingly acknowledged in literature (Kenny, Kashy, & Cook, 2006). Nonetheless, research generally focuses on individuals (parents or children) and less frequently on mutual dyadic influences, or how perceptions of one (e.g., parents) influence the other (e.g., children), and vice versa. The purpose of this study was to analyze the associations between family ritual meaning and QoL, and specifically examine family cohesion and hope as avenues through which family ritual meaning was linked to QoL in children with cancer and their parents. It is also likely that these pathways may differ in parents and children. Children's QoL is hypothesized to be related to parents' family ritual meaning directly and through the child's perception of family cohesion and hope. Parents' QoL is hypothesized to be related to children's family ritual meaning directly and through parents' perception of cohesion and hope (see Figure 1). Finally, as exploratory aims, differences of strengths of significant indirect effects linking each pair of independent and dependent variables through different mediators, and the invariance of the model across child's age-group (child vs. adolescents), treatment status (on- vs. off-treatment), and socioeconomic status (SES; low vs. medium/high).

Methods

Participants and Procedures

This study was approved by the ethics committees of three Portuguese public hospitals: Portuguese Institute of Oncology and São João Hospital, both in Porto, and Pediatric Department— Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra in Coimbra.

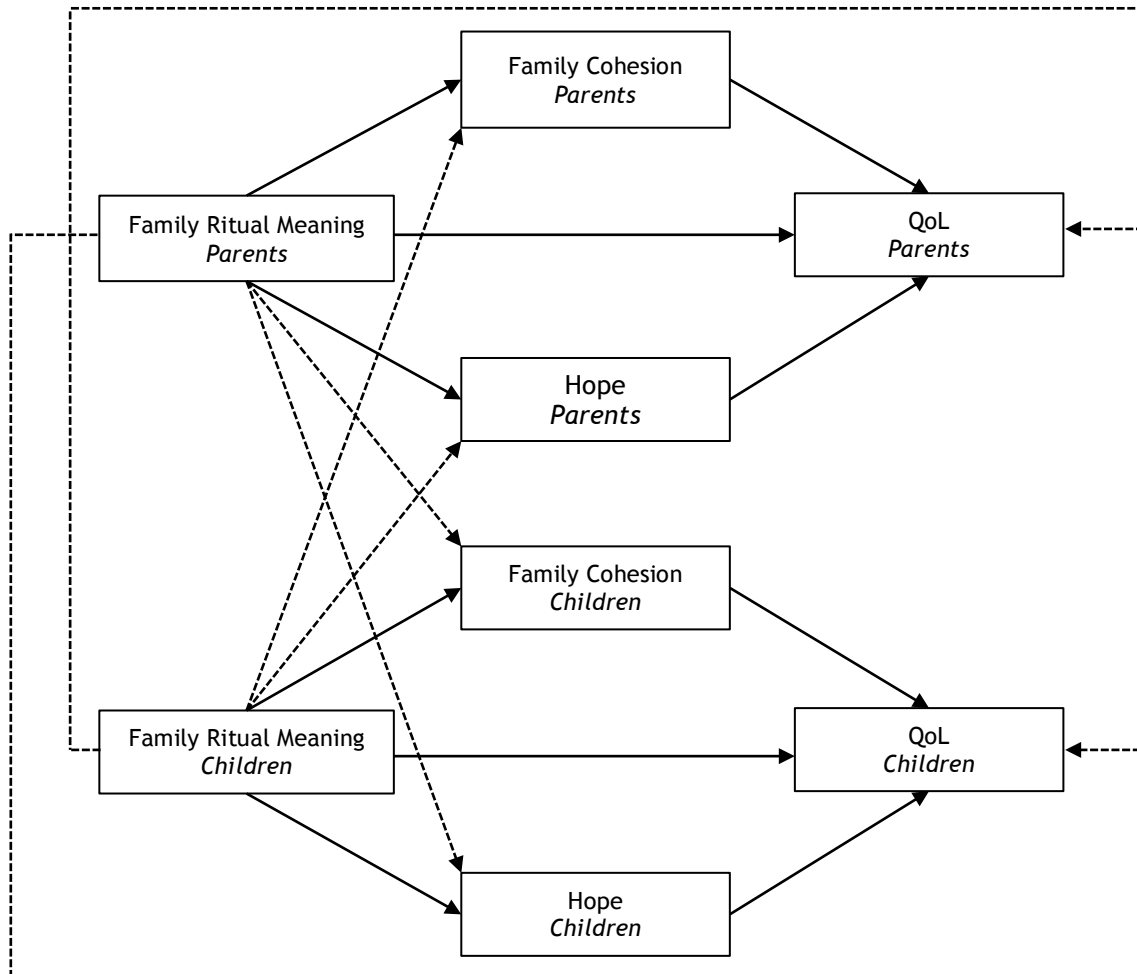


Figure 1. Proposed mediation model (individual pathways are solid lines and dyadic pathways are dashed lines). The dashed lines behind the boxes represent direct dyadic effects of parents' family ritual meaning to children' quality of life and children' family ritual meaning to parents' quality of life.

Between June 2012 and February 2014, all participants who met inclusion criteria were invited to participate, using a consecutive sampling approach. Inclusion criteria consisted of a diagnosis of cancer at least 3 months ago, aged 8-20 years, receiving treatment for primary diagnosed/relapsed cancer (on-treatment) or had finished antineoplastic treatments for primary diagnosed/relapsed cancer within the past 60 months (off-treatment). Exclusion criteria were comorbidity with other chronic illness (e.g., diabetes), major developmental disorders (e.g., Down syndrome), or end-of-life care. Of the 391 parent-child dyads approached to participate, nearly all ($N = 389$) provided data (99.49%). The two families that declined participation indicated that they were too busy or not interested.

A pediatric oncologist identified the eligible families according to the inclusion/exclusion criteria. The study aims were explained to all eligible participants, and informed consent was obtained from all parents and from children aged ≥ 13 years; assent was obtained from the younger children. The children and parents were asked to individually complete self-report measures in a paper-and-pencil version. The protocol was administered

in a separate room in either the inpatient or outpatient setting in the presence of a research assistant who assured that children and parents were unaware of each other's responses.

Participants were 389 Portuguese children with cancer and one of their parents¹⁹ (85.30% female). Children and parents ranged in age from 8 to 20 years ($M = 13.25$; $SD = 3.45$) and 22 to 68 years, respectively. Sociodemographic and clinical characteristics of the sample are provided in Table 1. The children were 3 months to 11 years after primary diagnosis and roughly half of the sample was on-treatment (48.80%).

Measures

Family Ritual Meaning

Family ritual meaning was assessed with the Portuguese version of the Family Ritual Questionnaire (FRQ; Fiese & Kline, 1993). Children and parents answered 15 forced-choice items covering family ritual meaning in three settings: dinnertime, weekend, and annual celebrations (five items for each). Example items are “In some families dinnertime is just for getting food/In other families dinnertime is more than just a meal it has special meaning”; “In some families there are strong feelings at birthdays and other celebrations/In other families annual celebrations are more casual; people aren't emotionally involved.” Participants first chose the description that best represented their family, and then decided whether that description was *really true* or *sort of true*. The four possible answers were scored using a 4-point Likert scale. A total score was computed by taking the average of the item scores, and higher scores indicate perceptions of stronger family ritual meaning. Test-retest reliability of the FRQ over 4 weeks was $r = .88$ (Fiese & Kline, 1993). Internal consistency in this study was .81 for parents and .80 for children.

Family Cohesion

The children's and parents' perceptions of family cohesion were measured with the 9-item Family cohesion subscale from the Portuguese version of the Family Environment Scale (Moos & Moos, 1986). The scale assessed the degree of commitment, help, and support that family members provided to each other (e.g., “Family members help and support one another”; “Family members spend a lot of time together and pay attention to each other”). The participants responded using a 6-point Likert scale. Mean ratings were calculated with higher scores indicating higher levels of family cohesion. Subscale's reliability was considered adequate with Cronbach's $\alpha .78$ and test-retest of $r = .86$ (Moos & Moos, 1986). Internal consistency on the current sample for parents was .86 and for the children was .77.

¹⁹ The term “parent” is used to denote the main caregiver; however 2.10% of those were grandparents, with whom the children lived.

Table 1. Sociodemographic and clinical characteristics of the sample (N =389 dyads)

	<i>M/n</i>	<i>SD/%</i>
Parents		
Age, <i>M SD</i>	42.31	6.60
Sex, <i>n %</i>		
Male	57	14.70
Female	332	85.30
Marital status, <i>n %</i>		
Single/separated/divorced/widowed	60	15.42
Married /partnered	329	84.58
SES, <i>n %</i>		
Low	213	54.80
Medium	139	35.70
High	37	9.50
Children		
Age group, <i>n %</i>		
Children (8-12 years)	165	42.40
Adolescents (13-20 years)	224	57.60
Sex, <i>n %</i>		
Male	208	53.50
Female	181	46.50
Treatment status, <i>n %</i>		
On-treatment	190	48.80
Off-treatment	199	51.20
Time since diagnosis in months, <i>M SD</i>	28.15	27.02
Relapse status, <i>n %</i>		
Nonrelapse	340	87.40
Relapse	49	12.60
Malignancy, <i>n %</i>		
Leukemias	141	36.25
Lymphomas	97	24.94
Langerhans cell histiocytosis	9	2.31
Solid tumor (extra CNS)	104	26.74
CNS tumor	38	9.77
Intensity of treatment, <i>n %</i>		
Least intensive	12	3.10
Moderately intensive	141	36.20
Very intensive	173	44.50
Most intensive	63	16.20

Note: *M* = mean. *SD* = standard deviation. CNS = central nervous system.

Hope

Parents' hope was measured by the Portuguese version of Adult Hope Scale (AHS; Snyder, Irving, & Anderson, 1991). Participants answered 12 items (e.g., "I can think of many ways to get out of a jam"; "I energetically pursue my goals") on an 8-point Likert scale; mean ratings were calculated. Children's hope was measured by the Portuguese version of Children Hope Scale (CHS; Snyder et al., 1997), comprising 6-items (e.g., "I think I am doing pretty well"; "I can think of many ways to get the things in life that are most important to me"). The participants answered the items on a 6-point Likert scale and mean ratings were calculated. In both scales, higher scores denote higher levels of hope. The test-retest reliability of AHS was $r = .85$ over 3 weeks and $r = .71$ for CHS over 4 weeks. Internal consistency in this sample was $.84$ for parents and $.80$ for children.

Quality of Life

Parents' QoL was assessed by the Portuguese version of EUROHIS-QOL (Schmidt, Mühlhan, & Power, 2006), a self-report variation of the World Health Organization Quality of Life-100 and World Health Organization Quality of Life, abbreviated version. The EUROHIS-QOL provided an overall score of physical, psychological, social, and environmental QoL using eight items (e.g., "How satisfied are you with your health") scored on a 5-point Likert scale. A total score was computed by taking the average of the item scores, with higher scores indicating better QoL. Children's QoL was measured with the Portuguese version of Pediatric Quality of Life Inventory™ (PedsQL™) 3.0 Cancer Module (Varni, Burwinkle, Katz, Meeske, & Dickinson, 2002), which includes 27 items on eight subscales (Pain and Hurt, Nausea, Procedural Anxiety, Treatment Anxiety, Worry, Cognitive Problems, Perceived Physical Appearance, and Communication). Participants evaluate how frequently a specific problem occurred in the past month (e.g., "I become sick to my stomach when I have medical treatments" or "I worry that my cancer will come back or relapse"), using a 5-point Likert scale. The items were reverse-scored and linearly transformed to fit a 0-100 scale; the total QoL score, with higher scores indicating better QoL, was used. The Cronbach's α in a sample of 10 countries was $.83$ for EUROHIS-QOL (Schmidt et al., 2006). The test-retest of PedsQL™ for a part of the sample on-treatment ($n = 52$) was $r = .79$ within 1 week. Internal consistency of total score in this study was $.83$ for parents and $.87$ for children.

Intensity of Treatment

Intensity of treatment was measured by the Portuguese version of the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 (Kazak et al., 2012). Using data from the medical record, 14 pediatric oncologists, blind to patient identity, classified each child's treatment into one of four levels of intensity, from level 1 (*least intensive treatment*) to 4 (*most intensive treatment*), based on diagnosis, phase of illness (primary diagnosis or relapse), stage/risk level for the patient, and treatment modalities. Interrater reliability for a subset of this

sample on- and off-treatment ($n = 59$) was almost perfect was almost perfect ($k = .97$; $p < .001$; Santos, Crespo, Canavarro, & Pinto, 2014).

Clinical and Sociodemographic Characteristics

Other relevant clinical information (e.g., time since primary diagnosis) and sociodemographic data were collected from parents. Using data from both parents' job and educational level, the SES of each family was classified in three levels (low, medium, and high) according to an accepted classification system for the Portuguese context. For analyses purposes, SES was dichotomized into two levels: low ($n = 213$; 54.80%) and medium/high ($n = 176$; 45.20%).

Data Analysis

Preliminary descriptive statistics and correlations (Pearson and Spearman) were computed for all outcomes with the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS, v. 21; IBM SPSS Inc., Chicago, IL). Structural equation modeling (SEM) was conducted with the Analysis of Moments Structures (AMOS, v. 21; Arbuckle, 2012) to test the direct and indirect pathways. The method of estimation was the maximum likelihood. A model-generation application of SEM (Jöreskog, 1993, as cited in Kline, 2005) was adopted: After examining the results for the full proposed model, we trimmed the model by removing nonsignificant paths using $p < .05$ as criteria. The model's goodness of fit was assessed using the reference value for the main fit indexes: chi-square statistic non-significant, comparative fit index (CFI) $\geq .95$, and root mean square error of approximation (RMSEA) $\leq .06$ (Hu & Bentler, 1999). The significance of indirect paths and differences of strength of significant indirect paths linking each pair of independent and dependent variables through different mediators (Preacher & Hayes, 2008) was evaluated using bootstrap resampling procedures with 5,000 samples (95% bias-corrected bootstrap confidence interval [CI]; Amos Development Corporation, 2010).

Multigroup analyses were conducted to determine whether the model was valid across the child's age-group (8-12 vs. 13-20 years), treatment status (on- vs. off-treatment), and SES (low vs. medium/ high) with structural weights (Byrne, 2010), constrained to be equal across groups, and assessed the difference in model fit using the chi-square difference method (Byrne, 2004).

Results

Preliminary Analyses

Table 2 presents the means, standard deviations, and correlations for all outcomes.

SEM Test of the Mediation

A path model was constructed to examine the direct and indirect links between

family ritual meaning and QoL for parents and children. First, we tested a full model, present in Figure 1, that showed a good fit, $\chi^2(4, N = 389) = 5.13, p = .28$; CFI = 1; RMSEA = .03. Next, we trimmed this model, by removing the non-significant paths. Figure 2 and Table 3 depicts the final trimmed model that presented a good fit, $\chi^2(11, N = 389) = 15.87, p = .15$; CFI = .99; RMSEA = .03.

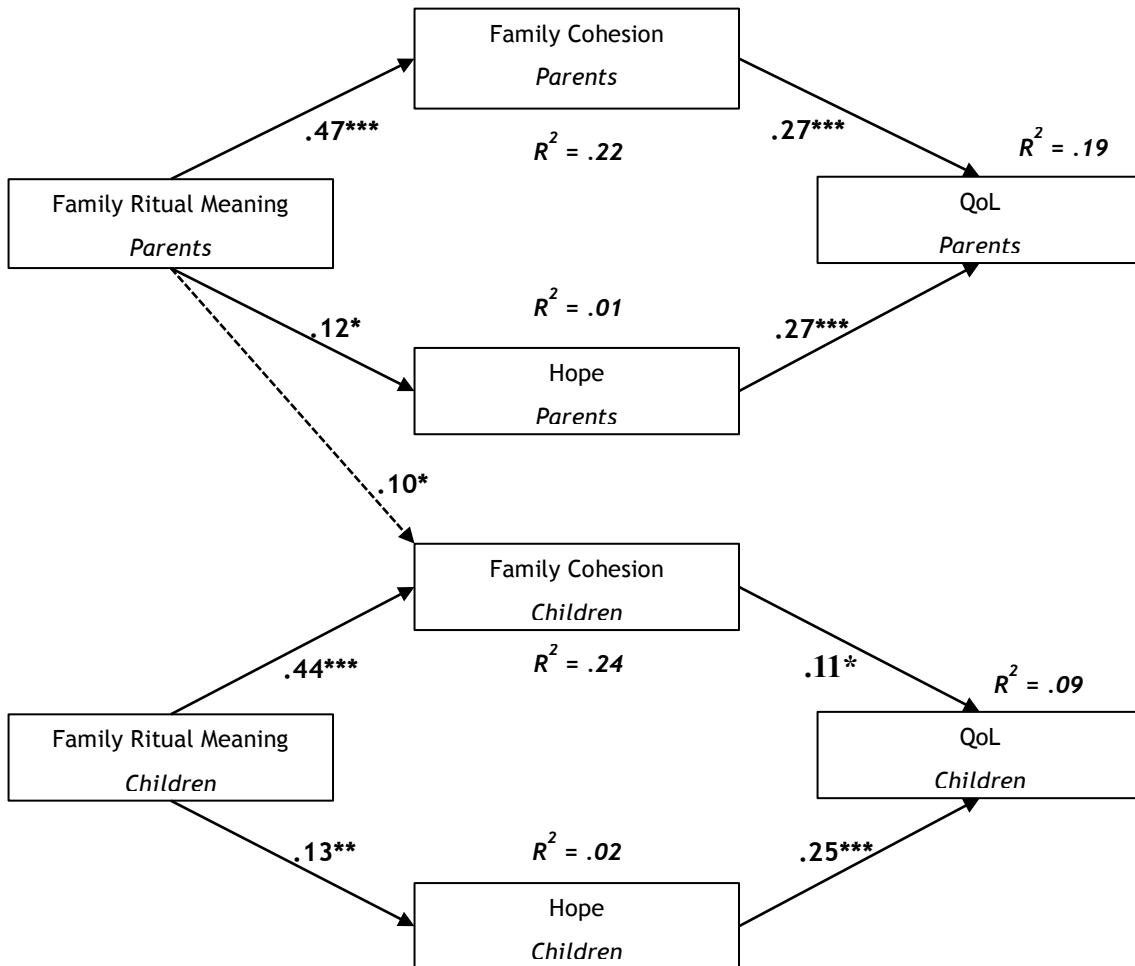


Figure 2. Trimmed model (non-significant paths are not represented). The path model shows the indirect effects of family ritual meaning on parents' and children' QoL via family cohesion and hope. *Note.* Fit indices for the model were as follows: $\chi^2(11, N = 389) = 15.87, p = .15$; CFI = .99; RMSEA = .03. Bold figures represent standardized coefficients. For simplicity, covariances (found in Table 3) are not depicted; $^{***} p < .001$; $^{**} p < .01$; $^* p < .05$.

Table 3 showed that at the individual level, family ritual meaning was associated with QoL, via family cohesion (95% CIs, [0.08, 0.19] and [0.15, 2.61] and hope (95% CIs, [0.01, 0.07] and [0.25, 1.81]) for both parents and children, respectively. At the dyadic level, children's QoL was linked to parents' family ritual meaning through the child's perception of family cohesion (95% CI, [0.02, 0.81]).

A comparison of the strength of significant indirect effects was calculated. For parents, but not for children, the indirect path from family ritual meaning to QoL via family cohesion was stronger than the one via hope (95% CI, [0.04, 0.16]). Multi-group analyses confirmed that the model was valid across age group [child vs. adolescents = $\Delta\chi^2(9) = 12.96, p = .16$], treatment status [on vs. off-treatment = $\Delta\chi^2(9) = 14.03, p = .12$], and SES [low vs. medium/high = $\Delta\chi^2(9) = 15.78, p = .07$].

Table 2. Descriptive Statistics and Matrix of Inter-correlations Among Study Variables for Parents and Children

Variable	Parents						Children						M	Range	SD	
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12				
Parents																
1. Family Ritual Meaning (P)																
2. Family Cohesion (P)	.47**															
3. Hope (P)	.13**	.31**														
4. QoL (P)	.20**	.35**	.36**													
5. Age (P)	-.07	.01	.08	-.04												
6. Sex (P; male/female)	-.04	-.09	-.08	-.12*	-.06											
Children																
7. Family Ritual Meaning (C)	.35**	.23**	.04	.12*	-.15**	-.00										
8. Family Cohesion (C)	.27**	.38**	.09	.18**	-.12*	-.08	.49**									
9. Hope (C)	.13**	.15**	.17**	.08	.11*	.03	.13**	.31**								
10. QoL (C)	-.02	.04	.13**	.11*	.06	-.01	.09	.19**	.28**							
11. Age (C)	-.07	.01	.09	-.05	.43**	-.01	-.22**	-.05	.12*	-.08						
12. Sex (C; male/female)	-.05	-.03	-.02	-.03	.04	-.08	-.02	.08	-.01	-.13*	.09					
13. SES (low/medium-high)	.13*	.15**	.12*	.20**	.07	-.12*	.08	.09	.09	.02	-.09	.04				

Note: M = mean. SD = standard deviation.

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

Table 3. *The Unstandardized Coefficients and Standard Errors for All Parameters, and the Bias-corrected Bootstrap Confidence Intervals for the Indirect Effects*

Estimated Parameters	Unstandardized Coefficients	Standard Errors	p	BC bootstrap, 95% CIs for indirect effects
Direct effects (individual level)				
Rituals P → Cohesion P	0.72	0.07	<.001	
Rituals P → Hope P	0.27	0.11	.016	
Cohesion P → QoL P	0.18	0.03	<.001	
Hope P → QoL P	0.13	0.02	<.001	
Rituals C → Cohesion C	0.54	0.06	<.001	
Rituals C → Hope C	0.22	0.08	.009	
Cohesion C → QoL C	2.38	1.14	.036	
Hope C → QoL C	4.11	0.84	<.001	
Direct effects (dyadic level)				
Rituals P → Cohesion C	0.12	0.06	.033	
Covariances				
Rituals P ↔ Rituals C	0.09	0.01	<.001	
e (Cohesion P) ↔ e (Hope P)	0.21	0.04	<.001	
e (Cohesion C) ↔ e (Hope C)	0.12	0.02	<.001	
e (Cohesion P) ↔ e (Cohesion C)	0.11	0.02	<.001	
e (Hope P) ↔ e (Hope C)	0.15	0.05	.002	
e (Cohesion P) ↔ e (Hope C)	0.05	0.03	.084	
e (Hope P) ↔ e (Cohesion C)	0.04	0.03	.190	
e (QoL P) ↔ e (QoL C)	0.41	0.32	.190	
Indirect effects (individual level)				
Rituals P → QoL P (via Cohesion P)	0.13	0.03	<.001	[0.08, 0.19]
Rituals P → QoL P (via Hope P)	0.03	0.02	.011	[0.01, 0.07]
Rituals C → QoL C (via Cohesion C)	0.30	0.62	.028	[0.15, 2.61]
Rituals C → QoL C (via Hope C)	0.89	0.40	.006	[0.25, 1.81]
Indirect effects (dyadic level)				
Rituals P → QoL C (via Cohesion C)	0.28	0.19	.031	[0.02, 0.81]
Differences of strength of indirect effects (individual level)				
Rituals P → QoL P (via Cohesion P) ≠	0.10	0.03	.004	[0.04, 0.16]
Rituals P → QoL P (via Hope P)				
Rituals C → HRQoL C (via Cohesion C) ≠	0.40	0.77	.632	[-1.22, 1.83]
Rituals C → HRQoL C (via Hope C)				

Note: BC = Bias-corrected Bootstrap; CIs = Confidence Intervals.

Discussion

The findings of the current study are congruent with prominent goals of improving the QoL of children with cancer and their parents, providing family support, and developing empirically supported interventions. Family rituals are important components of family functioning but have been underexplored in the pediatric cancer literature.

In line with the social-ecological and transactional models' assumptions about the mutual influences between parents and children (Fiese & Sameroff, 1989; Kazak, 1989), family ritual meaning was positively associated with better QoL through family cohesion and hope in a large Portuguese sample of patients and parents. In addition, parents' family ritual meaning was positively associated with children's family cohesion, which, in turn, was linked to better children's QoL.

Consistent with prior research showing associations between meaningful family rituals and adaptive family functioning (Fiese, 2006; Imber-Black, 2014), and between positive family functioning and psychological adaptation (Barakat et al., 2010; Litzelman et al., 2013), parents and children who endorsed more family ritual meaning perceived their families as more cohesive and experienced better QoL. It is possible that a family that has frequent and meaningful interactions, perceives their family as closer and interdependent (Crespo et al., 2011). A more cohesive family might be more inclined to share responsibilities (e.g., medication tasks, monitoring of symptoms), decision-making, and offer support—"being there"—which might contribute to better QoL.

The association of family ritual meaning and hope is another new finding in pediatric cancer. When parents and children endorse more family ritual meaning, they have more hope. The data underscore the rationale that family rituals act as an anchor, providing security in times of change (Fiese, 2006; Imber-Black & Roberts, 1998). Families that have a more secure base may feel more hopeful to deal more flexibly with their disease- and treatment-related challenges. They might, for example, engage in more adaptive coping behaviors (e.g., treatment adherence, prevention behaviors). When the families have more hope, they perceive better QoL (Hexdall & Huebner, 2007; Horton & Wallander, 2001). Families who are more hopeful may also be less hypervigilant and/or worry or ruminate less about symptoms, leading to better QoL. However, in the absence of previous empirical evidence and given that the association between family ritual meaning and hope was small, this result must be interpreted with caution.

Similar to the findings of Crespo and colleagues (2011), when parents ascribed more meaning to family rituals, children reported a stronger sense of family cohesion, which, in turn, was linked to better QoL. Although children and adolescents are active participants in daily living routines and cocreators of meaningful rituals, adults play the role of "kinkeepers" and have a stronger say in how family rituals are organized (Fiese, 2006). This may explain

why family ritual meaning perceived by parents was associated with children's QoL, via children's cohesion, but not the reverse.

The comparison of the strength of pathways of children and adults is novel. For children, both family cohesion and hope are important mediators between family ritual meaning and QoL. However, for parents, family ritual meaning promoted QoL mainly via family cohesion. This suggests that family ritual meaning has a more important role in fostering family integration and closeness, than on promoting an optimistic outlook. Fostering family cohesion through family rituals (e.g., eating meals together imbued with a special meaning shared by family members) may be easier and more tangible than changing attitudes (e.g., hopefulness) and can provide a structure to enhance family well-being. In addition, a cohesive family can lighten the burden of the caregiver by the sharing of responsibilities (Klassen et al., 2007). This may explain why family ritual meaning promotes QoL mainly via family cohesion for the parents, but not for the children.

The associations tested did not differ by child's age-group, treatment status, or SES. Although the nature of family rituals will naturally differ in families of younger versus older children, the commitment to initiate and maintain rituals may be consistent. Similarly, although being off-treatment differs in major ways from being on-treatment, family rituals, cohesion, and hope seemed to be equally important in both conditions. Moreover, although lower SES may entail increased challenges, this does not seem to compromise the influence of family rituals. It is worth noting that more than half of this sample was composed of low SES families. SES is associated with lower QoL in pediatric cancer in general (Litzelman et al., 2013). This is particularly timely because Portugal is experiencing an economic crisis with increased rates of unemployment and fewer financial supports for families in the health-care system (e.g., less reimbursement of transportation and medicine and increased user fees associated with care, even in a system with National Health System). Although SES obviously is not easy to change, these data suggest that enhancing family ritual meaning can be important even in the presence of financial distress.

Of course, the findings must be considered within the scope of some limitations. First, this is a Portuguese sample and may not be fully generalizable to other cultures. While research in other cultural contexts will help clarify this point, family cohesion and hope are rather universal concepts as are family rituals (e.g., family celebrations, meals). Second, given the cross-sectional research design, it is not possible to establish causality among the variables. Although most literature endorses the role of rituals as promoters of family belonging and cohesion (e.g., Crespo et al., 2011; Fiese et al., 2002; Santos et al., 2012), more longitudinal studies are needed to test the direction of these effects and how family rituals, family cohesion may influence each other over time. An alternative model where hope was the independent variable and family cohesion and ritual meaning were the mediators had a poor fit. Third, although QoL is a widely accepted relevant outcome that

covers multiple domains, testing these associations with respect to other outcomes (e.g., anxiety, depression, well-being) will be important. Fourth, because most parents were mothers, caution must be taken when generalizing results; fathers' perceptions of family ritual meaning and whether fathers' family ritual meaning holds a similar relation with QoL are not known. Fifth, it is possible there are other clinically important variables not addressed in this study (e.g., treatment adherence, diagnosis, time since diagnosis, intensity of treatment) that might explain more of the variance of the children's QoL. Sixth, in addition to family rituals, it would be valuable to examine whether family cohesion is also linked to hope. Finally, cancer-specific family rituals may also be meaningful (e.g., marking the end of a chemo cycle) and should be investigated as strategies to promote well-being.

The results provided empirical evidence for the relevance of incorporating an adaptive focus on family rituals in interventions in pediatric cancer, comparable with the family interventions developed for other health problems (Fiese, 2006). In the face of serious illness, meaningful family rituals may contract, disappear, or be put aside (Imber-Black, 2014). Moreover, some families, under specific circumstances, may find it difficult to carry out flexible and meaningful rituals; when family rituals are insufficient or too rigid (Roberts, 2003), the benefits of these family events may be weakened or disappear altogether. The data in this report suggest that, to the extent possible, helping families recognize, preserve, adapt, and develop new healthy family rituals across the course of treatment may help foster QoL by improving family cohesion and hope.

In conclusion, understanding the factors and the mechanisms that link family rituals and functioning can inform the development of interventions. The current study showed that family ritual meaning predicted QoL via family cohesion and hope, at the individual level, and that children's QoL was influenced by parent' family ritual meaning, but only via children's family cohesion, and that these associations are similar across child's age-group, treatment status, and SES. Our findings contribute to the literature that suggests the relevance of interventions that can create, activate, or adapt family rituals, as naturally existing family resources, to address the psychosocial needs of children with cancer and their parents during this adverse period of the family's life.

Funding

This research was supported by a PhD fellowship from the Portuguese Foundation for Science and Technology (SFRH/BD/80777/2011) to Susana Santos. Additional support for the preparation of this manuscript was provided from K05CA128805 (Kazak) and the Nemours Center for Healthcare Delivery Science.

Conflicts of interest: None declared.

References

- Amos Development Corporation (Producer). (2010). User-defined estimand: Multiple estimands [DVD]. Retrieved from <http://amosdevelopment.com/> video
- Barakat, L. P., Marmer, P. L., & Schwartz, L. A. (2010). Quality of life of adolescents with cancer: Family risks and resources. *Health and Quality of Life Outcomes, 8*, 63. doi:10.1186/1477-7525-8-63
- Blotcky, A. D., Raczynski, J. M., Gurwitch, R., & Smith, K. (1985). Family influences on hopelessness among children early in the cancer experience. *Journal of Pediatric Psychology, 10*, 479-493. doi:10.1093/jpepsy/10.4.479
- Byrne, B. M. (2004). Testing for multigroup invariance using AMOS graphics: A road less traveled. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal, 11*, 272-300. doi:10.1207/s15328007sem1102_8
- Byrne, B. M. (2010). *Structural equation modeling with AMOS: Basic concepts applications and programming* (2nd ed.). New York, NY: Routledge.
- Crespo, C., Kielpiowski, M., Pryor, J., & Jose, P. E. (2011). Family rituals in New Zealand families: Links to family cohesion and adolescents' well-being. *Journal of Family Psychology, 25*, 184-193. doi:10.1037/a0023113
- Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpiowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology, 48*, 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811
- Fiese, B. H. (2006). *Family routines and rituals*. New Haven, CT: Yale University Press.
- Fiese, B. H., & Kline, C. A. (1993). Development of Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology, 6*, 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290
- Fiese, B. H., & Sameroff, A. J. (1989). Family context in pediatric psychology: A transactional perspective. *Journal of Pediatric Psychology, 14*, 293-314.
- Fiese, B. H., Tomcho, T. J., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology, 16*, 381-390. doi:10.1037//0893-3200.16.4.381
- Hexdall, C. M., & Huebner, E. S. (2007). Subjective well-being in pediatric oncology patients. *Applied Research in Quality of Life, 2*, 189-208. doi:10.1007/s11482-008-9037-7
- Hinds, P. S., Quargnenti, A., Fairclough, D., Bush, A. J., Betcher, D., Rissmiller, G., . . . Gilchrist, G. S. (1999). Hopefulness and its characteristics in adolescents with cancer. *Western Journal of Nursing Research, 21*, 600-620. doi:10.1177/01939459922044072

- Horton, T. V., & Wallander, J. L. (2001). Hope and social support as resilience factors against psychological distress of mothers who care for children with chronic physical conditions. *Rehabilitation Psychology, 46*, 382-399. doi:10.1037/0090-5550.46.4.382
- Hu, L., & Bentler, P. M. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling, 6*, 1-55. doi:10.1080/10705519909540118
- Imber-Black, E. (2014). Will talking about it make it worse? Facilitating family conversations in the context of chronic and life-shortening illness. *Journal of Family Nursing, 20*, 151-163. doi:10.1177/1074840714530087
- Imber-Black, E., & Roberts, J. (1998). *Rituals for our times: Celebrating, healing, and changing our lives and our relationships*. Northvale, NJ: Jason Aronson.
- Irving, L., Snyder, C., & Crowson, J. (1998). Hope and coping with cancer by college women. *Journal of Personality, 66*, 195-214.
- Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 57*, 25-30. doi:10.1037/0022-006X.57.1.25
- Kazak, A. E., Hocking, M. C., Ittenbach, R. F., Meadows, A. T., Hobbie, W., DeRosa, B. W., . . . Reilly, A. (2012). A revision of the intensity of treatment rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatric Blood and Cancer, 59*, 96-99. doi:10.1002/pbc.23320
- Kenny, D. A., Kashy, D. A., & Cook, W. L. (2006). *Dyadic data analysis*. New York, NY: The Guilford Press.
- Klassen, A. F., Anthony, S. J., Khan, A., Sung, L., & Klaassen, R. (2011). Identifying determinants of quality of life of children with cancer and childhood cancer survivors: A systematic review. *Support Care Cancer, 19*, 1275-1287. doi:10.1007/s00520-011-1193-x
- Klassen, A. F., Raina, P., Reineking, S., Dix, D., Pritchard, S., & O'Donnell, M. (2007). Developing a literature base to understand the caregiving experience of parents of children with cancer: A systematic review of factors related to parental health and well-being. *Support Care Cancer, 15*, 807-818. doi:10.1007/s00520-007-0243-x
- Kline, R. B. (2005). *Principles and practice of structural equation modeling* (2nd ed.). New York, NY: The Guilford Press.
- Litzelman, K., Barker, E., Catrine, K., Puccetti, D., Possin, P., & Witt, W. P. (2013). Socioeconomic disparities in the quality of life in children with cancer or brain tumors: The mediating role of family factors. *Psychooncology, 22*, 1081-1088. doi:10.1002/pon.3113

- Markson, S., & Fiese, B. H. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of Pediatric Psychology, 25*, 471-480. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471
- Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family environment scale manual* (2nd ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.
- Preacher, K. J., & Hayes, A. F. (2008). Asymptotic and resampling strategies for assessing and comparing indirect effects in multiple mediator models. *Behavior Research Methods, 40*, 879-891.
- Roberts, J. (2003). Setting the frame: Definition, functions, and typology of rituals. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (pp. 3-48). New York, NY: W. W. Norton & Company.
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Pinto, A. (2014). Intensidade do tratamento e qualidade de vida relacionada com a saúde no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 [Intensity of treatment and health-related quality of life in pediatric cancer: Findings from the Portuguese version of Intensity of Treatment Rating Scale 3.0]. *Psychology, Community & Health, 3*, 158-171. doi:10.5964/pch.v3i3.97
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of life and adjustment in youths with asthma: The contributions of family rituals and the family environment. *Family Process, 51*, 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- Schmidt, S., Mühlhan, H., & Power, M. (2006). The EUROHIS-QOL 8-item index: Psychometric results of a cross-cultural field study. *European Journal of Public Health, 16*, 420-428. doi:10.1093/eurpub/cki155
- Shorey, H. S., Snyder, C. R., Yang, X., & Lewin, M. R. (2003). The role of hope as a mediator in recollected parenting, adult attachment, and mental health. *Journal of Social and Clinical Psychology, 22*, 685-715. doi:10.1521/jscp.22.6.685.22938
- Snyder, C. R. (2002). Hope theory: Rainbows in the mind. *Psychology Inquiry, 13*, 249-275.
- Snyder, C. R., Hoza, B., Pelham, W. E., Rapoff, M., Ware, L., Danovsky, M., . . . Stahl, K. J. (1997). The development and validation of the Children's Hope Scale. *Journal of Pediatric Psychology, 22*, 399-421. doi:10.1093/jpepsy/22.3.399
- Snyder, C. R., Irving, L., & Anderson, J. R. (1991). Hope and health: Measuring the will and the ways. In C. R. Snyder & D. R. Forsyth (Eds.), *Handbook of social and clinical psychology: The health perspective* (pp. 285-305). Elmsford, NY: Pergamon Press.
- Varni, J. W., Burwinkle, T. M., Katz, E. R., Meeske, K., & Dickinson, P. (2002). The PedsQL in pediatric cancer: Reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory generic core scales, multidimensional fatigue scale, and cancer module. *Cancer, 94*, 2090-2106. doi:10.1002/cncr.10428

Secção IV | Family rituals, financial burden and mothers' adjustment in pediatric cancer

[História e contributo do Estudo IV]

Neste estudo, à semelhança do anterior, continuamos na rota da identificação de fatores de influência na adaptação, agora especificamente de pais. Centramo-nos, portanto, num fator de influência específico, a sobrecarga financeira familiar. No contexto espaço-temporal português, um dos países mais afetados por uma das maiores crises socioeconómicas da história contemporânea (de Vogli, 2014), o modo como ao nível microssistémico da família estes efeitos se repercutem é uma questão com especial atualidade, especialmente no contexto do cancro pediátrico (Bona et al., 2014).

Se a sobrecarga financeira percecionada por pais de crianças com cancro parece inegável (Eiser & Upton, 2007; Fletcher, 2010; Warner et al., 2015), os seus efeitos na adaptação individual destes não são tão inequívocos. Alguns estudos sugerem que a sobrecarga financeira está associada, de forma positiva, à sintomatologia psicopatológica nas fases de tratamento e de pós-tratamento (e.g., P. D. Creswell et al., 2014); todavia, outros não encontraram qualquer associação entre estas variáveis (e.g., P. Sloper, 2000). Esta divergência pode dever-se à influência de uma terceira variável que poderá alterar a força da relação entre a sobrecarga financeira e a sintomatologia psicopatológica ou à composição mista das amostras, mas cuja dimensão não permitiu explorar diferenças de sexo (e.g., P. D. Creswell et al., 2014). Recorde-se que as diferenças na sintomatologia psicopatológica entre mães e pais de crianças com cancro encontradas no estudo de Larson et al. (1994) foram comparáveis às encontradas na população geral. Assim, no **Estudo IV** procurámos explorar o papel protetor dos rituais familiares na relação entre a sobrecarga financeira e sintomatologia psicopatológica numa amostra de mães de crianças com cancro, contornando, desta forma, a limitação metodológica apontada aos estudos anteriores.

Espera-se que os resultados deste estudo possam ser particularmente úteis para uma compreensão dos efeitos complexos que explicam a variabilidade dos resultados e que possam corroborar a necessidade de abandonar as perspetivas mais deterministas e patológicas que apontam para a inevitabilidade do impacto negativo da exposição a um evento indutor de *stress*, como o diagnóstico de uma doença oncológica em idade pediátrica. Mais uma vez os rituais familiares assumem um papel central: a verificação do seu papel protetor em situações de sobrecarga financeira convida os profissionais de saúde a adotarem práticas que sejam compatíveis com a preservação e a promoção destes eventos familiares.

Family Rituals, Financial Burden, and Mothers' Adjustment in Pediatric Cancer

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Melissa A. Alderfer³, Anne E. Kazak³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children's Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, Sidney Kimmel Medical College of Thomas Jefferson University

Abstract

The financial burden of childhood cancer may contribute to the distress that parents experience during and after treatment. Inconsistent relationships between financial burden and parental psychological distress highlight the need to identify psychosocial factors that may moderate this relationship. In this study, we aimed to determine if family ritual meaning moderates the relationship between financial burden and anxiety and depression symptoms among mothers of children with cancer. Portuguese mothers of children with cancer on-treatment and off-treatment ($N = 244$) completed measures of financial burden, anxiety and depression symptoms, and family ritual meaning. Moderating effects were tested using hierarchical multiple regression analyses. Family ritual meaning buffered the effect of financial burden on anxiety, but not on depression symptoms. The relationship between financial burden and anxiety symptoms was *not* significant when mothers endorsed higher levels of family ritual meaning. Although preliminary, the current findings suggest that high levels of perceived family ritual meaning may constitute a protective factor against the effect of financial burden on mothers' anxiety symptoms. Promoting family ritual meaning might be an effective approach to reducing anxiety symptoms of mothers of children with cancer under the context of the financial burden.

Keywords: Mothers' adjustment; Family rituals; Financial burden; Pediatric cancer

Introduction

Among the many challenges families face when caring for a child diagnosed with cancer, financial problems and their consequences have not been extensively examined in the literature. Besides the extra medical and nonmedical expenses, parents, typically mothers, often reduce work hours or quit their jobs to meet caregiving demands during and after treatment (Eiser & Upton, 2007; Fletcher, 2010; Warner, Kirchhoff, Nam, & Fluchel, 2015). This disruption in the family budget during the course of treatment, which might increase over time (Bona, London, Guo, Frank, & Wolfe, 2016; Warner et al., 2015) and after treatment (e.g., Patterson, Holm, & Gurney, 2004) represents a significant burden for families. This is true even in families with higher levels of income (Bona et al., 2014) and in countries with universal health-care systems (Eiser & Upton, 2007). For example, although universal health care is available for children with cancer in Portugal, the country is experiencing an economic crisis, with cuts in state financial support, increased rates of unemployment and low incomes. This situation, coupled with the centralization of pediatric oncology care in only three major cities, requiring many families to travel or relocate for care (e.g., treatment, clinic visits, exams), has intensified the financial burden for families.

Previous researchers have sought to understand the impact of the financial burden of childhood cancer on parents' psychological adjustment. Some studies have revealed links between financial burden and poor quality of life, poor emotional health (Klassen et al., 2011; Wiener, Kazak, Noll, Patenaude, & Kupst, 2015) and more depressive symptoms (Creswell, Wisk, Litzelman, Allchin, & Witt, 2014). However, others (e.g., Sloper, 2000) revealed that the employment and financial problems of mothers of children with cancer was not associated with their psychological distress concurrently or prospectively. Such inconsistent results suggest that financial burden may be associated with worse adaptation for some, but not all parents. The scarcity and heterogeneity of findings points out the need to identify psychosocial factors that may exert a protective effect on parental adjustment in the context of economic adversity. According to the disability-stress-coping model (Wallander et al., 1989), in adverse health conditions, the negative impact of risk factors (e.g., financial burden) on adaptation (e.g., anxiety, depression symptoms) may be moderated by resistance factors such as socioecological variables (e.g., family strengths, such as rituals).

Family rituals are events that have a symbolic meaning shared by the family as a unit. The symbolic significance ascribed to family rituals is associated with adaptation for individuals and families across the life cycle. Family rituals promote positive interactions, emotional expression and support, and stability during times of stress (Crespo et al., 2013; Fiese, 2006). Empirical studies have demonstrated that higher levels of family ritual meaning are associated with fewer anxiety symptoms and psychological problems in children with chronic health conditions (Markson & Fiese, 2000; Santos, Crespo, Silva, & Canavarro, 2012). For example, among families experiencing high family stress in the context of poor child

health, children of mothers who report high levels of family ritual meaning, report fewer anxiety symptoms (Markson & Fiese, 2000).

Within the pediatric oncology literature, higher levels of family cohesion—one of the pathways of influence from family rituals to adjustment (Fiese et al., 2002)—associated with less anxiety (Kazak et al., 1998) and fewer depressive symptoms for parents (Manne, Lesanics, Meyers, & Wollner, 1995) and less psychological distress for mothers (Sloper, 2000). Also, engaging in fewer regular family activities is associated with more depressive symptoms for parents (Manne et al., 1995).

Taken together, these findings suggest that when the caregiver can find meaning in family ritual interactions amid daily challenges, both caregiver and child may be protected. In this study we aimed to test whether family ritual meaning was a protective factor for mothers' psychological adjustment in the adverse context of financial burden. We hypothesized that greater financial burden would be positively associated with anxiety and depression symptoms and that these associations would be buffered in the context of greater perceived family ritual meaning.

Methods

Procedures and participants

The present study was approved by the ethics committees of three Portuguese public hospitals: the Portuguese Institute of Oncology (IPO-Porto) and São João Hospital, both in Porto, Portugal, and the Pediatric Department, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra in Coimbra, Portugal. Those eligible for the study were mothers, each of whom had a child/adolescent under the age of 21 with cancer, diagnosed at least 3 months prior to recruitment, and either receiving antineoplastic treatment for primary diagnosed/relapsed cancer (on-treatment) or had finished antineoplastic treatments for primary diagnosed/relapsed cancer within the past 60 months (off-treatment). Mothers were ineligible for participation if their children with cancer had other chronic illnesses (e.g., diabetes), major developmental disorders (e.g., Down syndrome), or if they were receiving end-of-life care. Using a consecutive sampling approach, between January 2013 and February 2014, the pediatric oncologist associated with this study identified all mothers who met inclusion criteria at each site and referred them to a research assistant. A total of 245 mothers were approached at their treating hospital by the research assistant and were asked to participate in a project that aimed to understand factors associated with well-being for families of children with cancer. After being invited to participate, 244 (99.6%) agreed to take part in this study. The one mother who declined participation indicated she was not interested in the study. After written informed consent was obtained, participants were asked to complete self-report measures in a paper-and-pencil format in a separate room in either the inpatient or outpatient hospital setting in the presence of a research assistant.

The participating mothers ranged in age from 22 to 64 years old ($M = 40.22$; $SD = 6.72$); their children's (55% of whom were male) ages ranged from 1 to 20 years old ($M = 11.24$; $SD = 4.67$). The majority of participating mothers were married or partnered ($n = 205$; 84%); the remainder ($n = 39$, 16%) were single, separated, divorced or widowed. Regarding clinical characteristics, the children were 3 months to 11 years beyond their primary diagnosis ($M = 26.05$ months; $SD = 27.83$) and the majority of them were on-treatment ($n = 147$, 60%). Diagnoses included the following: leukemias ($n = 100$, 41%), solid tumors (noncentral nervous system; $n = 64$, 26%), central nervous system tumors ($n = 38$, 16%), lymphomas ($n = 40$, 16%), and Langerhans cell histiocytosis ($n = 2$, 1%).

Measures

Financial burden

The mothers' perceptions of financial burden were measured with one of the subscales of the Portuguese version of the Impact on Family scale (IOF; Stein & Riessman, 1980, Portuguese version: Albuquerque, Fonseca, Pereira, Nazaré, & Canavarro, 2011). Mothers answered 4 items related to the perceived financial impact of having children with medical conditions on their families (e.g., "The illness is causing financial problems for the family," "Time is lost from work because of hospital appointments," "I am cutting down the hours I work to care for my child") on a 4-point Likert scale ranging from 1 (*strongly agree*) to 4 (*strongly disagree*). The items were reverse-scored, with higher mean scores denoting more financial burden. For this sample, internal consistency was .78.

Family ritual meaning

The mothers' perceptions of family ritual meaning were assessed with the Portuguese version of the Family Ritual Questionnaire (FRQ; Fiese & Kline, 1993, Portuguese version: Crespo, Davide, Costa, & Fletcher, 2008). Mothers responded to 15 forced-choice items assessing family ritual meaning in three settings (dinnertime, weekends, and annual celebrations). An example item is: "In some families, dinnertime is just for getting food. In other families, dinnertime is more than just a meal; it has special meaning." Mothers first chose the description that best represented their families, and then each mother decided whether that description was *really true* or *sort of true* for her family. Scores of 1 to 4 were assigned to the response options, with higher scores indicating higher levels of family ritual meaning. Internal consistency in this sample was .80.

Anxiety and depression symptoms

The mothers' experience of anxiety and depression symptoms were measured with the Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale (HADS; Zigmond & Snaith, 1983, Portuguese version: Pais-Ribeiro et al., 2007). Mothers answered seven anxiety items

and even depression items on 4-point Likert scales. Higher scores indicated more symptoms. In this sample, the Cronbach's α coefficients were .79 for anxiety and .78 for depression symptoms.

Clinical and sociodemographic characteristics

Mothers reported on relevant clinical variables (e.g., time since primary diagnosis), sociodemographic characteristics, and work status. Work status was categorized as active ($n = 102$; 42%) or nonactive workers ($n = 142$; 58%). For this study, unemployed individuals, beneficiaries of social security, individuals not employed outside the home, and retired individuals formed the set of nonactive workers.

Socioeconomic status (SES)

SES was measured according to an accepted classification system for the Portuguese context (Simões, 1994). Using education level and job (for nonactive workers, we used their last jobs) the research assistant classified participants' and their partners' SES into one of three levels (1 = *low*, 2 = *medium*, and 3 = *high*), consistent with procedures used by Simões (1994). Participant and partner SES scores were averaged within family. In the case of single-parent families (never married, widowed, divorced, or separated), when the fathers did not contribute economically, we considered only mothers' SES. To remedy an imbalance in the distribution of these scores, low ($n = 129$, 53%), medium ($n = 88$, 36%), and high ($n = 27$, 11%) SES were dichotomized into low ($n = 129$, 53%) versus medium-high ($n = 115$, 47%).

Data Analysis

Before testing whether family ritual meaning moderated the association between financial burden and anxiety and depression symptoms, we explored possible covariates. Correlations and one multivariate analysis of variance (MANOVA) with anxiety and depression symptoms as outcomes were undertaken to identify relevant sociodemographic covariates, such as mothers' age, work status (active vs. nonactive workers), dichotomous SES (low vs. medium-high), child age, and treatment status (on-treatment vs. off-treatment). Next, the independent and moderator variables were mean-centered (Holmbeck, 2002). Two hierarchical multiple regressions were performed to examine the main and interaction effects of financial burden and family ritual meaning on mothers' anxiety and depression symptoms. The independent variable (financial burden) was entered into the first step, the moderator variable (family ritual meaning) was entered into the second step, and the interaction between the two variables into the final step. The significance of the interaction as a predictor of the outcome variable, after controlling for the effects of the two predictors, was interpreted as evidence of moderation (Holmbeck, 2002). Next, using ModGraph (Jose, 2013), significant interaction effects were plotted from the estimates of the dependent variable at different values of the moderator, and the strength and the significance of each regression

line was analyzed with post hoc-simple slope computations. Given the sample size and the use of three predictors in the multiple regression analysis, and using an alpha of $p = .05$ for significance, the study had > 80% power to detect as significant an R^2 of .05. The statistical analyses were conducted with the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS, v. 21; IBM Corp. in Armonk, NY).

Results

Associations between Financial Burden, Anxiety and Depression Symptoms, and Family Ritual Meaning

Table 1 presents descriptive statistics and bivariate Pearson's correlations among the study variables. Participants, on average, scored high in financial burden and low in anxiety and depression symptoms. Significant positive correlations were found between financial burden and anxiety and depression symptoms. Financial burden was not significantly associated with family ritual meaning. Family ritual meaning was negatively correlated with anxiety and depression symptoms.

Examination and Identification of Potential Important Covariates

Mothers' and children's age were not associated with anxiety and depression symptoms (see Table 1). There were no differences in anxiety and depression symptoms as a function of work status, $F(2,235) = 2.40$, $p = .093$; Wilks' $\lambda = 0.98$, $\eta_p^2 = .02$, dichotomous SES, $F(2,235) = 1.10$, $p = .334$; Wilks' $\lambda = 0.99$, $\eta_p^2 = .01$, or child treatment status, $F(2,235) = 1.52$, $p = .221$; Wilks' $\lambda = 0.99$, $\eta_p^2 = .01$. Given these findings, no covariates were entered into the primary analyses.

Family Rituals Meaning as a Moderator of Associations between Financial Burden and Anxiety and Depressive Symptoms

As shown in Table 2, financial burden was positively associated with mothers' anxiety and depression symptoms in step 1 of the regression equation. In step 2, the negative association between family ritual meaning and the outcomes remained significant after controlling for financial burden. In step 3, the interaction between family ritual meaning and financial burden was significant for anxiety, but not depression symptoms.

Table 1. Descriptive Statistics and Bivariate Pearson's Correlations Among Study Variables

Variables	1	2	3	4	5	6	7	Range	Actual Range	M	SD
1. Family ritual meaning	-	-.02	-.13*	-.13*	.13+	.06	.05	1-4	2-4	3.35	0.48
2. Financial burden			.27**	.28**	-.02	-.15*	-.22**	1-4	1-4	2.76	0.69
3. Anxiety symptoms				.69**	-.00	.03	-.06	0-3	0-3	1.52	0.57
4. Depression symptoms					.08	.09	-.13*	0-3	0-3	1.07	0.56
5. Mothers' age						.60**	.11	-	22-64	40.22	6.72
6. Children' age							.21*	-	1-20	11.24	4.67
7. Time since primary diagnosis (months)							-	-	3-132	26.05	27.83

Note. M = mean. SD = standard deviation.
 + $p < .06$. * $p < .05$. ** $p < .01$.

Table 2. Hierarchical Multiple Regression Predicting Anxiety and Depression Symptoms From Financial Burden and Family Ritual Meaning

Step and predictor variable	Dependent variable: Anxiety symptoms					Dependent variable: Depression symptoms								
	B	SE B	B	R ²	R ² _{adj}	ΔF	ΔR ²	B	SE B	B	R ²	R ² _{adj}	ΔF	ΔR ²
Step 1				.07	.07	ΔF _(1,242) = 19.08**	.07				.08	.07	ΔF _(1,242) = 19.98**	.08
Constant	1.53	0.04						1.07	0.03					
Financial burden	0.22	0.05	.27**					0.22	0.05	.28**				
Step 2				.09	.08	ΔF _(1,241) = 3.94*	.02				.09	.09	ΔF _(1,241) = 4.38*	.02
Constant	1.53	0.04						1.07	0.03					
Financial burden	0.22	0.05	.27**					0.22	0.05	.27**				
Family ritual meaning	-0.14	0.07	-.12*					-0.15	0.07	-.13*				
Step 3				.10	.10	ΔF _(1,240) = 5.89*	.02				.10	.08	ΔF _(1,240) = 0.57	.00
Constant	1.52	0.04						1.07	0.03					
Financial burden	0.21	0.05	.26**					0.22	0.05	.27**				
Family ritual meaning	-0.15	0.07	-.13*					-0.15	0.07	-.13*				
Interaction term	-0.24	0.10	-.15*					-0.08	0.10	-.05				

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

Regarding the anxiety symptoms, post hoc simple-slope analyses (see Figure 1) revealed that higher levels of financial burden were associated with higher levels of anxiety symptoms when mothers endorsed low ($B = 0.33$, $SE B = 0.07$; $t = 4.91$, $p < .001$) or medium ($B = 0.21$, $SE B = 0.05$; $t = 4.20$, $p < .001$) levels of family ritual meaning, but not when they endorsed high levels of family ritual meaning ($B = 0.09$, $SE B = 0.07$; $t = 1.31$, $p = .191$).

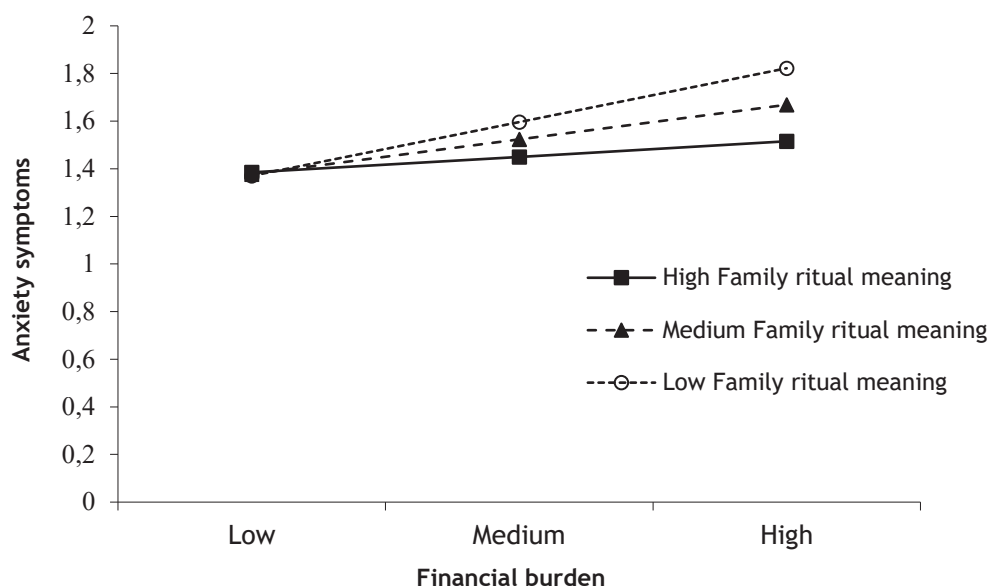


Figure 1. The moderating effect of family ritual meaning on the association between financial burden and anxiety symptoms.

Discussion

Anchored in the disability-stress-coping model (Wallander et al., 1989), in the present study we tested the buffering role of family ritual meaning on the associations between financial burden and anxiety and depression symptoms in mothers of children with cancer. The main finding was that for mothers who reported high levels of family ritual meaning, financial burden was not associated with anxiety symptoms during treatment and within five years after cessation of treatment. Family ritual meaning did not buffer the association between financial burden and depressive symptoms.

Consistent with the literature (Creswell et al., 2014; Klassen et al., 2011; Wiener et al., 2015), mothers' perceptions of financial burden were associated with higher levels of anxiety and depression symptoms. Financial difficulties may be particularly pronounced for parents of children with cancer. A parent, typically the mother, may need to reduce hours or quit a job to care for a child with cancer, reducing income. In addition, expenses may rise considerably because of treatment costs that are not covered by insurance or universal health-care systems. This can lead to significant financial burden, which might intensify parental worries, and consequently, increase anxiety and depressive symptoms. Past studies

have indicated that parents of children with cancer may take on bank loans or deplete their savings to cover costs (e.g., Fletcher, 2010), situations that can potentially lead to long-term financial problems (Creswell et al., 2014; Eiser & Upton, 2007).

The results of this study expand current knowledge by showing that family ritual meaning buffered the relationship between financial burden and anxiety symptoms in mothers of children with cancer. Previous research has demonstrated that, among families with high levels of health-related stress, greater family ritual meaning is associated with less anxiety for children (Markson & Fiese, 2000). The role of family ritual meaning in the context of medical financial burden has not been previously studied. In a context of multiple stressors, the repetition of family ritual interactions imbued with meaning may be important for the provision of security, stability, and organization in family life (Fiese, 2006; Markson & Fiese, 2000). Rituals also provide the family with a sense of normalcy and emotional support in the context of chronic health conditions (Crespo et al., 2013). For mothers who must reduce work hours or suspend work altogether, family rituals may contribute to a positive outlook on spending more time with the child and family (Buchbinder, Longhofer, & McCue, 2009); finding positive meanings through the experience of a life-threatening pediatric illness such as cancer (Barakat, Alderfer, & Kazak, 2006) may constitute a protective factor against the adverse effect of financial burden or changes in life priorities after diagnosis, and may ultimately influence mothers' perception of anxiety symptoms. Further, rituals help ground families in life instead of cancer (Roberts, 2003), which might also explain this result.

We did not find support for the hypothesis that family ritual meaning would moderate the relationship between financial burden and depression symptoms. For individuals with symptoms of depression, it may be especially difficult to shift the focus from the negative aspects of the adverse situation (Beck, 2008), namely financial burden. Dickstein and colleagues (1998) demonstrated that family functioning during mealtime interaction was compromised when mothers were experiencing depressive symptoms. The difficulty in deriving a positive meaning from experience and the social withdrawal associated with depression might provide fewer opportunities for positive family interaction.

Although the nature of the challenges may be different according to a family's SES, the child's age and treatment status, or mothers' age and work status, it seems that these variables did not influence mothers' symptoms of anxiety or depression. This finding is similar to that of earlier work (e.g., Barakat, Marmar, & Schwartz, 2010). This pattern is particularly interesting because unlike family ritual meaning, sociodemographic and medical characteristics are not amenable to change.

The findings need to be considered in the context of the study's limitations. The cross-sectional design precludes causality inferences and may not be ideal. For example, the negative association between family ritual meaning and anxiety symptoms could indicate that greater meaning in family rituals leads to less anxiety, but it could also mean that greater

anxiety symptoms elicit lower levels of family ritual meaning; longitudinal studies would help to clarify the relationship and examine the financial burden over the course of the disease. Additionally, in an ideal moderation analysis, the moderator is a stable construct and the predictor is measured at a point in time that precedes the outcome. Moreover, our measure of SES did not provide much precision and the low percentage of families with high SES required the dichotomization of SES, which decreased our ability to determine if family SES was associated with our outcomes and patterns of interest. Also, although family ritual meaning and symptoms of anxiety and depression are rather universal concepts, and financial burden can be perceived across the spectrum of health-care systems (e.g., Eiser & Upton, 2007; Warner et al., 2015), we do not know if these results are fully generalizable to other Western urban contexts beyond Portugal. In addition, it is important to highlight that Portugal has been experiencing an economic crisis in the last few years, a macroeconomic context that may have exacerbated the experiences of these families. Future studies should include tests of this moderation model in other samples, other settings, and should also extend to the adjustment of fathers. It is also possible that variables not measured in this study might contribute to mothers' adjustment, such as couple's dyadic coping, relationship quality, type of diagnosis or intensity of treatment. Finally, these findings were based solely on maternal self-reports and may be biased. Multi-informant assessment is recommended in future work.

The results highlight the need to further investigate how families perceive and deal with the financial strain associated with pediatric cancer. This is in line with evidence-based standards, which indicate the need for assessment of risk for financial hardships at the time of diagnosis for all pediatric oncology families (for a review, see Wiener et al., 2015). The inclusion of standardized psychosocial measures will lead to a deeper knowledge about the impact of financial burden on childhood cancer outcomes and emotional health, and a more effective allocation of psychosocial intervention resources to families.

In conclusion, the present study has contributed to the body of literature supporting the notion that quality of family functioning can be a determining factor in pediatric mothers' adjustment (e.g., Vrijmoet-Wiersma et al., 2008). Moreover, current findings expand those of previous studies (e.g., Markson & Fiese, 2000) by demonstrating the protective role of family rituals for mothers' adjustment in the context of pediatric cancer.

Funding

This research was supported by a PhD fellowship from the Portuguese Foundation for Science and Technology (SFRH/BD/80777/2011) to Susana Santos. Additional support for the preparation of this manuscript was provided from K05CA128805 (Kazak) and the Nemours Center for Healthcare Delivery Science.

Conflicts of interest: None declared.

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 (IOF)]. *Laboratório de Psicologia, 9*, 173-187. doi:10.14417/lp.632
- Barakat, L. P., Alderfer, M. A., & Kazak, A. E. (2006). Posttraumatic growth in adolescent survivors of cancer and their mothers and fathers. *Journal of Pediatric Psychology, 31*, 413-419. doi:10.1093/jpepsy/jsj058
- Barakat, L. P., Marmer, P. L., & Schwartz, L. A. (2010). Quality of life of adolescents with cancer: Family risks and resources. *Health and Quality of Life Outcomes, 8*, 63. doi:10.1186/1477-7525-8-63
- Beck, A. T. (2008). The evolution of the cognitive model of depression and its neurobiological correlates. *The American Journal of Psychiatry, 165*, 969-977. doi:10.1176/appi.ajp.2008.08050721
- Bona, K., Dussel, V., Orellana, L., Kang, T., Geyer, R., Feudtner, C., & Wolfe, J. (2014). Economic impact of advanced pediatric cancer on families. *Journal of Pain and Symptom Management, 47*, 594-603. doi:10.1016/j.jpainsymman.2013.04.003
- Bona, K., London, W. B., Guo, D., Frank, D. A., & Wolfe, J. (2016). Trajectory of material hardship and income poverty in families of children undergoing chemotherapy: A prospective cohort study. *Pediatric Blood & Cancer, 63*, 105-111. doi:10.1002/pbc.25762
- Buchbinder, M., Longhofer, J., & McCue, K. (2009). Family routines and rituals when a parent has cancer. *Families, Systems, & Health, 27*, 213-227. doi:10.1037/a0017005
- Crespo, C., Davide, I. N., Costa, M. E., & Fletcher, G. J. O. (2008). Family rituals in married couples: Links with attachment, relationship quality, and closeness. *Personal Relationships, 15*, 191-203. doi:10.1111/j.1475-6811.2008.00193.x
- Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology, 48*, 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811
- Creswell, P. D., Wisk, L. E., Litzelman, K., Allchin, A., & Witt, W. P. (2014). Parental depressive symptoms and childhood cancer: The importance of financial difficulties. *Supportive Care in Cancer, 22*, 503-511. doi:10.1007/s00520-013-2003-4
- Dickstein, S., Seifer, R., Hayden, L. C., Schiller, M., Sameroff, A. J., Keitner, G., . . . Magee, K. D. (1998). Levels of family assessment: II. Impact of maternal psychopathology on

- family functioning. *Journal of Family Psychology*, 12, 23-40. doi:10.1037/0893-3200.12.1.23
- Eiser, C., & Upton, P. (2007). Costs of caring for a child with cancer: A questionnaire survey. *Child: Care, Health and Development*, 33, 455-459. doi:10.1111/j.1365-2214.2006.00710.x
- Fiese, B. H. (2006). *Family routines and rituals*. New Haven, CT: Yale University Press.
- Fiese, B. H., & Kline, C. A. (1993). Development of Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology*, 6, 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290
- Fiese, B. H., Tomcho, T. J., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology*, 16, 381-390. doi:10.1037//0893-3200.16.4.381
- Fletcher, P. C. (2010). My child has cancer: The costs of mothers' experiences of having a child with pediatric cancer. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, 33, 164-184. doi:10.3109/01460862.2010.498698
- Holmbeck, G. N. (2002). Post-hoc probing of significant moderational and mediational effects in studies of pediatric populations. *Journal of Pediatric Psychology*, 27, 87-96. doi:10.1093/jpepsy/27.1.87
- IBM Corp. Released 2012. IBM SPSS Statistics for Windows, Version 21.0. Armonk, NY: IBM Corp.
- Jose, P. E. (2013). *ModGraph-I: A programme to compute cell means for the graphical display of moderational analyses: The Internet version, Version 3.0*. Wellington, New Zealand: Victoria University of Wellington. Retrieved from <http://pavlov.psyc.vuw.ac.nz/paul-jose/modgraph/>
- Kazak, A. E., Stuber, M. L., Barakat, L. P., Meeske, K., Guthrie, D., & Meadows, A. T. (1998). Predicting posttraumatic stress symptoms in mothers and fathers of survivors of childhood cancers. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 37, 823-831. doi:10.1097/00004583-199808000-00012
- Klassen, A. F., Raina, P., McIntosh, C., Sung, L., Klaassen, R. J., O'Donnell, M., . . . Dix, D. (2011). Parents of children with cancer: Which factors explain differences in health-related quality of life. *International Journal of Cancer*, 129, 1190-1198. doi:10.1002/ijc.25737

- Manne, S. L., Lesanics, D., Meyers, P., & Wollner, N. (1995). Predictors of depressive symptomatology among parents of newly diagnosed children with cancer. *Journal of Pediatric Psychology, 20*, 491-510. doi:10.1093/jpepsy/20.4.491
- Markson, S., & Fiese, B. H. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of Pediatric Psychology, 25*, 471-480. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471
- Pais-Ribeiro, J., Silva, I., Ferreira, T., Martins, A., Meneses, R., & Baltar, M. (2007). Validation study of a Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale. *Psychology, Health & Medicine, 12*, 225-235. doi:10.1080/13548500500524088
- Patterson, J. M., Holm, K. E., & Gurney, J. G. (2004). The impact of childhood cancer on the family: A qualitative analysis of strains, resources, and coping behaviors. *Psycho-Oncology, 13*, 390-407. doi:10.1002/pon.761
- Roberts, J. (2003). Rituals and serious illness: Marking the path. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2nd ed., pp. 237-252). New York, NY: Norton.
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of life and adjustment in youths with asthma: The contributions of family rituals and the family environment. *Family Process, 51*, 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- Simões, M. R. (1994). *Investigações no âmbito da Aferição Nacional do Teste das Matrizes Progressivas Coloridas de Raven (M.P.C.R) [Investigations in the context of the national standardization of the Raven Coloured Progressive Matrices test (RCPM)]* (Unpublished doctoral dissertation), University of Coimbra, Coimbra, Portugal.
- Sloper, P. (2000). Predictors of distress in parents of children with cancer: A prospective study. *Journal of Pediatric Psychology, 25*, 79-91. doi:10.1093/jpepsy/25.2.79
- Stein, R. E., & Riessman, C. K. (1980). The development of an Impact on Family Scale: Preliminary findings. *Medical Care, 18*, 465-472. doi:10.1097/00005650-198004000-00010
- Vrijmoet-Wiersma, C. M. J., van Klink, J. M. M., Kolk, A. M., Koopman, H. M., Ball, L. M., & Egeler, R. M. (2008). Assessment of parental psychological stress in pediatric cancer: A review. *Journal of Pediatric Psychology, 33*, 694-706. doi:10.1093/jpepsy/jsn007
- Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., DeHaan, C. B., Wilcox, K. T., & Banis, H. T. (1989). The social environment and the adaptation of mothers of physically handicapped children. *Journal of Pediatric Psychology, 14*, 371-387. doi:10.1093/jpepsy/14.3.371
- Warner, E. L., Kirchhoff, A. C., Nam, G. E., & Fluchel, M. (2015). Financial burden of pediatric cancer for patients and their families. *Journal of Oncology Practice, 11*, 12-18. doi:10.1200/jop.2014.001495

Wiener, L., Kazak, A. E., Noll, R. B., Patenaude, A. F., & Kupst, M. J. (2015). Standards for psychosocial care of children with cancer and their families: An introduction to the special issue. *Pediatric Blood & Cancer*, *62*, S419-S424. doi:10.1002/pbc.25675

Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). The Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, *67*, 361-370. doi:10.1111/j.1600-0447.1983.tb09716.x

Secção V | Parents' romantic attachment predicts family ritual meaning and family cohesion among parents and their children with cancer

[História e contributo do Estudo V]

No **Estudo V**, manteve-se o foco no contexto familiar através de um olhar que se considera complementar aos anteriores. Sabendo que o funcionamento familiar mais positivo pode ser um dos determinantes para a adaptação individual de crianças com cancro (p. ex. Barakat et al., 2010) e dos seus pais (Kazak et al., 1998), é igualmente importante compreender quais os fatores que o podem influenciar. A inconsistência dos resultados relativos ao funcionamento familiar entre famílias com crianças com cancro e famílias com crianças saudáveis (para uma revisão, consultar Van Schoors et al., 2015), poderá indicar que a ausência ou a presença da doença não é o único determinante para o funcionamento familiar. Por este motivo, partindo do pressuposto de que os fatores de influência coexistem (Kazak, 1989) e que os estilos de vinculação podem estar particularmente pronunciados em alturas de *stress* e de ameaça à vida (Bowlby, 1982) como na fase de tratamento do cancro pediátrico, considerámos relevante analisar a influência da vinculação amorosa dos pais no funcionamento familiar na perspetiva das crianças e dos pais seis meses depois do início da fase de tratamento.

Pela relevância do funcionamento familiar para a adaptação individual e pela escassez de estudos sobre os preditores do funcionamento familiar, sobretudo de estudos diádicos, no **Estudo V** procurou-se analisar o papel da vinculação amorosa dos pais na coesão familiar e nos rituais familiares percebidos pelas crianças (*efeitos do parceiro*) e pelos pais (*efeitos do ator*) durante a fase de tratamento. Nesse estudo os níveis conjugal e familiar cruzam-se em busca de uma compreensão cada vez mais complexa da matriz de influências da adaptação familiar num contexto potencialmente adverso.

Parents' Romantic Attachment Predicts Family Ritual Meaning and Family Cohesion Among Parents and Their Children With Cancer

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Anne E. Kazak³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children's Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, Sidney Kimmel Medical College of Thomas Jefferson University

Abstract

Objective: Family functioning is associated with adaptation in pediatric illness. This study examines the role of parents' relationships (specifically romantic attachment) as a predictor of family ritual meaning and family cohesion for parents and their children with cancer. **Methods:** The dyads, 58 partnered Portuguese parents and their children in treatment, reported on family ritual meaning and family cohesion at Time 1 (T1) and after 6 months (T2). Parents also completed the questionnaire assessing romantic attachment at T1. **Results:** Parents' avoidant attachment, but not anxious attachment, predicted lower family ritual meaning and family cohesion after 6 months. T2 family ritual meaning mediated the relationship between T1 avoidant attachment and T2 family cohesion. **Conclusions:** Parents' avoidant attachment may have a negative effect on family functioning in parents and children. Clinical intervention to address avoidant attachment or/and to promote family ritual meaning may help strengthen family ties.

Keywords: Family cohesion; Family rituals; Parents; Pediatric cancer; Romantic attachment

Introduction

Pediatric cancer is a potentially traumatic experience for patients and their parents. During cancer treatment, both children and parents are exposed to multiple possibly traumatic events (e.g., the child's pain, death of other patients) that can trigger posttraumatic stress symptoms (Kazak, Boeving, Alderfer, Hwang, & Reilly, 2005) and have a negative impact on psychological adjustment (Klassen, Anthony, Khan, Sung, & Klaassen, 2011; Klassen et al., 2007). Although most children and parents report improving adjustment over time (Price, Kassam-Adams, Alderfer, Christofferson, & Kazak, 2016), a subset experiences persistent traumatic stress responses that may potentially have negative effects as they grow into adolescence and young adulthood (Rourke, Hobbie, Schwartz, & Kazak, 2007).

Family functioning is a key issue for understanding adaptation (Alderfer & Kazak, 2006). Family rituals such as celebrations, traditions, and patterned family interactions are an important part of family life (e.g., Wolin & Bennett, 1984). Family ritual meaning, the degree to which these events have shared significance for family members (Fiese, 1992), provides a sense of group belonging and identity (Fiese et al., 2002), and is associated with psychological well-being and adjustment for parents and their children, in general and specifically in pediatric health conditions (Crespo et al., 2013; Fiese et al., 2002, for reviews). Empirical studies of families with children suffering from asthma demonstrated that mothers' family ritual meaning was associated with less anxiety in the child (Markson & Fiese, 2000), and that children's family ritual meaning was linked to enhanced quality of life and fewer emotional and behavioral problems via high levels of family cohesion and low levels of conflict (Santos, Crespo, Silva, & Canavarro, 2012). Within the pediatric oncology literature, fewer family activities such as shared meals and bedtimes were associated with more depressive symptoms for parents (Manne, Lesanics, Meyers, & Wollner, 1995). When parents and children reported higher levels of family ritual meaning, they also reported more family cohesion and hope, which in turn were linked to better quality of life in family members (Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2015). These studies support the claim that family cohesion, the perception of the degree of commitment, help and support that family members provide to each other (Moos & Moos, 1986), is one of the pathways by which family ritual is associated with adaptation (Fiese, 2006). In fact, family cohesion has been consistently associated with parents' and children's adjustment (e.g., Maurice-Stam, Oort, Last, & Grootenhuis, 2008; Varni, Katz, Colegrove, & Dolgin, 1996). Although there is a growing body of research attesting to the benefits of family ritual meaning and family cohesion for families of children with cancer, little is known about the predictors of these benefits or whether they are the same for parents and children.

Attachment is an important concept that has not been extensively studied in families of children with cancer. Attachment theory posits that in times of real or perceived threat endangering a person's survival, the attachment behavioral system is activated (Bowlby, 1982). However, people differ systematically in the way they regulate

distress and cope with threats and stressors (Mikulincer & Shaver, 2007). When a child is diagnosed with cancer, parents may seek security and protection from their partners as attachment figures (Hazan & Shaver, 1987) and use the romantic relationship as a safe haven in times of heightened stress (Burwell, Brucker, & Shields, 2006). However, in these situations, maladaptive patterns associated with insecure attachment (avoidant or anxious attachment) can also occur (Nicholls, Hulbert-Williams, & Bramwell, 2014). On the one hand, avoidantly attached individuals might adopt deactivating strategies, such as denial of attachment needs, because they distrust their partners' goodwill and strive to maintain emotional distance and independence. On the other hand, anxiously attached individuals might adopt "hyperactivating" attachment strategies, such as insistent attempts to attain proximity and merge with the other person, because they worry that a partner will not be available and responsive in times of need (Mikulincer & Shaver, 2007). Considering the systemic model of attachment, insecure attachment can reduce the quality of couple relationships (Mikulincer, Florian, Cowan, & Cowan, 2002). These difficulties at the couple level can have ripple effects on other family systems and interfere with overall well-being. A systematic review of families with children suffering from cancer showed considerable variability in couple relationships: Whereas many parents consider their partners as their primary source of support and report that closeness can increase over time, this was not true for other couples (Long & Marsland, 2011). In addition, empirical studies have shown a link between marital satisfaction and family functioning (Crespo, Davide, Costa, & Fletcher, 2008; Pedro, Ribeiro, & Shelton, 2015). Given that parents' romantic attachment affects the couple relationship, it is plausible to suggest that attachment may impact overall family and child functioning (Mikulincer & Shaver, 2007) and shape the ways in which families establish and maintain ritual interactions and family cohesion. This may be particularly relevant in the context of serious illness because the attachment behavioral system is more likely to be activated.

Empirical studies have provided support for the link between attachment security and family functioning, namely, family rituals and family cohesion. Leon and Jacobvitz (2003) concluded that adult attachment measured prior to the first child's birth with the Adult Attachment Interview (a semi-structured interview in which adults are asked to describe childhood relationships with their parents) was an important predictor of family ritual meaning seven years later in the newly formed family. A recent cross-sectional study focusing on preschool children's food consumption found that adult attachment insecurity was associated with less frequent and planned family mealtimes and less communication during these occasions (Bost, Wiley, Fiese, Hammons, & McBride, 2014). With regard to romantic attachment, three cross-sectional studies with married couples showed that higher scores on avoidant attachment were associated with lower levels of family ritual meaning (Crespo et al., 2008) and lower levels of family cohesion (Mikulincer & Florian, 1999; Pedro et al., 2015) for both wives and husbands. Family ritual meaning reinforces family ties and cohesion (Fiese et al., 2002; Santos et al., 2012), so avoidantly attached

individuals may feel less comfortable and be less willing to invest and become involved in these events (Crespo et al., 2008). Although anxious attachment to the romantic partner could be expected to interfere negatively with family functioning because people who score high on anxious attachment can, sometimes, have difficulties with interpersonal skills (Mikulincer & Shaver, 2007), empirical findings have been heterogeneous: two studies did not find a relationship between anxious attachment and family ritual meaning (Crespo et al., 2008) or family cohesion (Pedro et al., 2015); and one study found a positive association between anxious attachment and family cohesion (Mikulincer & Florian, 1999).

So far, no study has examined the links between parents' romantic attachment and family ritual meaning and family cohesion in individuals in a pediatric health context. In families dealing with pediatric cancer, the parents experience a common threat, and treatment demands might lead to decreased contact with other attachment figures, making the romantic partner a more central person. Previous studies have found that in the context of a threat or stress, when people could benefit more from support, people high in avoidant and anxious attachment not only reported less available support but were also less satisfied with the support they received (Mikulincer & Shaver, 2007). Moreover, the influence of romantic attachment on family ritual meaning and family cohesion has generally been addressed via parents' reports. We do not know whether children's own perceptions of family ritual meaning and family cohesion are equally influenced.

The present study aims to extend previous findings by examining the longitudinal links between parents' romantic attachment and family functioning in a specific condition of threat, distress, and uncertainty. More specifically, the present study examined whether avoidant and anxious attachments were linked to family ritual meaning and family cohesion for both parents and their children during treatment for pediatric cancer. We expected that higher levels of parents' avoidant attachment at Time 1 (T1) would predict lower levels of family ritual meaning and family cohesion for both family members at Time 2 (T2). Given the inconclusive findings regarding the links between anxious attachment and whole-family variables, we tested these associations but made no predictions with regard to them. Additionally, based on previous studies showing that family ritual meaning promotes family cohesion, we proposed a mediation hypothesis: T1 avoidant or anxious attachment would predict T2 family ritual meaning, which in turn would be associated with T2 family cohesion for both family members.

Methods

Procedures and participants

This study was approved by the ethics committees of three Portuguese public hospitals: the Portuguese Institute of Oncology (IPO-Porto) and São João Hospital, both in Porto, and the Pediatric Department—Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra in Coimbra. Between June 2012 and December 2013, all participants who met the inclusion

criteria were invited to participate using a consecutive sampling approach. The inclusion criteria consisted of a diagnosis of pediatric cancer at least 3 months earlier; receiving treatment for a primary diagnosis or relapsed cancer; treatment duration expected for ≥ 9 months; aged 8-19 years; and parents in a relationship for at least 1 year before the study. Exclusion criteria for the child were comorbidity with other chronic illnesses (e.g., diabetes), major developmental disorders (e.g., Down syndrome), change in marital status (separation or divorce or ending of the relationship), and significant clinical change between the two time points (e.g., palliative care).

After a pediatric oncologist identified the eligible families, a research assistant asked family members to participate in a project to understand factors associated with well-being for families of children with cancer. Written informed consent was obtained from all parents and from children aged ≥ 13 years; assent was obtained from younger children. The parents and children were asked to individually complete paper-and-pencil versions of self-report measures in a separate room in either the inpatient or outpatient setting in the presence of a research assistant who ensured that the children and parents were unaware of each other's responses. Of the eligible parent-child dyads approached to participate, all ($N = 65$) provided data at T1. At T2, 6 months after the first data collection procedure, all eligible participants ($N = 58$) were contacted to complete the follow-up assessment protocol. Seven dyads were excluded from the sample owing to the patient's death ($n = 6$) or clinical change ($n = 1$) between T1 and T2.

In all, 58 Portuguese children with cancer and one of their parents²⁰ (87.93% female) were enrolled in this study. At T1, the parents ranged in age from 31 to 56 years old ($M = 41.93$; $SD = 5.81$), and the children ranged in age from 8 to 19 years old ($M = 12.88$; $SD = 3.40$). The children were in treatment across the study's two time points; at T1, an average of 11.21 months ($SD = 17.65$) had passed since the primary diagnosis. Sociodemographic and clinical characteristics of the sample are provided in Table 1.

²⁰ The participants were all biological parents. Of the 58 parents, the majority ($n = 51$) were in a relationship with their child's other biological parent.

Table 1. *Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample at T1 (N = 58 dyads)*

Parents' and children's characteristics	<i>n</i>	%
Parents		
Sex		
Male	7	12.07
Female	51	87.93
Marital status		
Married§	52	89.66
In a relationship	6	10.34
Socioeconomic status		
Low	27	46.60
Medium-high	31	53.40
Children		
Age-group		
Children (8-12 years)	24	41.38
Adolescents (13-19 years)	34	58.62
Sex		
Male	29	50.00
Female	29	50.00
Relapse status		
Non-relapse	54	93.10
Relapse	4	6.90
Malignancy		
Leukemias	35	60.34
Lymphomas	10	17.24
Langerhans cell histiocytosis	1	1.72
Solid tumor (non central nervous system)	9	15.52
Central nervous system tumor	3	5.17
Intensity of treatment		
Level 1: Least intensive	1	1.72
Level 2: Moderately intensive	17	29.31
Level 3: Very intensive	31	53.45
Level 4: Most intensive	9	15.52

Note: T1 = Time 1. §The majority (*n* = 50; 86.21%) were in a first marriage.

Measures²¹

Avoidant and Anxious Attachment

Parents' romantic attachment was measured with the Portuguese version of the Experiences in Close Relationships–Relationship Structures Questionnaire (ECR-RS; Fraley, Heffernan, Vicary, & Brumbaugh, 2011). Parents answered nine items related to their romantic relationship, six items assessing attachment avoidance (e.g., “It helps to turn to this person in times of need”, “I don’t feel comfortable opening up to this person”), and three items evaluating attachment anxiety (e.g., “I’m afraid this person may abandon me”, “I worry that this person won’t care about me as much as I care about him or her”) on a 7-point Likert scale. Four items were reversed, and mean ratings were calculated; higher scores denoted greater avoidant and anxious attachment. The original study showed a two-factor structure and Cronbach’s alphas of .81 for attachment avoidance and .83 for attachment anxiety (Fraley et al., 2011). Test-retest reliability for romantic attachment was approximately .65 over 30 days (Fraley, 2016). For this sample, internal consistency was .68 for avoidant attachment and .92 for anxious attachment.

Family ritual meaning

The children’s and parents’ perceptions of family ritual meaning were assessed with the Portuguese version of the Family Ritual Questionnaire (FRQ; Fiese & Kline, 1993). Parents and children answered 15 forced-choice items covering family ritual meaning in three settings: dinnertime, weekends and annual celebrations. Example items were “In some families, dinnertime is just for getting food/In other families, dinnertime is more than just a meal; it has special meaning”; “In some families, there are strong feelings at birthdays and other celebrations/In other families, annual celebrations are more casual; people aren’t emotionally involved.” The participants first chose the description that best represented their family and then decided whether that description was *really true* or *sort of true*. The four possible answers were scored using a 4-point Likert scale. A total score was computed by taking the average of the item scores, and higher scores indicated perceptions of stronger family ritual meaning. The internal consistency in the current sample ranged from .79 to .85 across respondents and time points (see Table 2).

Family cohesion

The children’s and parents’ perceptions of family cohesion were measured with the nine-item Family Cohesion subscale from the Portuguese version of the Family Environment Scale (FES; Moos & Moos, 1986). The scale assessed the degree of family cohesion (e.g., “Family members help and support one another”). The participants responded using a 6-

²¹ All measures were previously validated in past studies following the guidelines for translating and validating assessment instruments in different countries. Once conceptual, item, semantic, and operational equivalences were established, the translation processes were performed, including translation and back-translation (Streiner & Norman, 2008). Finally, empirical studies allowed to assess the measurement equivalence between the Portuguese and the original versions of all the measures.

point Likert scale. Mean ratings were calculated, with higher scores indicating greater levels of family cohesion. The internal consistency in the current sample ranged from .80 to .89 across respondents and time points (see Table 2).

Intensity of Treatment

Intensity of treatment was measured by the Portuguese version of the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 (ITR-3.0; Kazak et al., 2012). Using data from medical records, a pediatric oncologist, blind to the patient's identity, classified each child's treatment into one of four levels of intensity, from levels 1 (*least intensive treatment*) to 4 (*most intensive treatment*), based on the diagnosis, phase of illness (new diagnosis or relapse), stage/risk level for the patient, and treatment modalities (see Table 1). Inter-rater reliability was $k = .97$ (Santos, Crespo, Canavarro, & Pinto, 2014).

Clinical and socio-demographic characteristics

Additional clinical and sociodemographic characteristics (e.g., time since primary diagnosis, age) were collected from the parents. Socioeconomic status (SES) was measured according to an accepted classification system for the Portuguese context (Simões, 1994). Using data from both parents' jobs (for nonactive workers, we used the last job) and educational level, the research assistant classified SES into one of the three levels, from level 1 (*low*) to level 3 (*high*), based on a standardized chart. Mean scores of SES were calculated between the two parents' SES. For analysis purposes, SES was dichotomized into two levels: low and medium-high (see Table 1).

Data Analysis

The statistical analyses were conducted with the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS, v. 21; IBM SPSS Inc., Chicago, IL). To test for significant changes across the two assessment points in family ritual meaning and family cohesion, we conducted two repeated-measures multivariate analyses of variance (RM-MANOVAs). Descriptive statistics and correlations were computed for all variables. Given that participants might endorse both the avoidant and anxious attachment characteristics (Bartholomew & Horowitz, 1991), we conducted partial correlations between parents' avoidant attachment and the study variables, controlling for parents' anxious attachment and vice versa. Then, we ran four hierarchical multiple regression analyses. These analyses examined longitudinal associations between T1 parents' avoidant and anxious attachment and T2 parents'/children's family ritual meaning or family cohesion, after controlling for T1 parents'/children's family ritual meaning or family cohesion and covariate effects (variables significantly correlated with one of the dependent variables). The INDIRECT macro for SPSS provided by Preacher & Hayes (2004) was used to test our mediation hypothesis with four models. T1 parents' avoidant or anxious attachment was the independent variable, T2 parents'/children's family ritual meaning was the mediator, T2 parents'/children's family cohesion was the

outcome, and T1 parents' avoidant or anxious attachment and T1 time since primary diagnosis were included as the covariates. The significance of the indirect effects was tested using bootstrapping, a nonparametric procedure that constructs a confidence interval for the indirect effects by computing the effects in 5,000 subsamples constructed with replacements. The indirect effects were considered significant when zero did not fall within the 95% confidence interval (95% CI). The alpha level was set at $p < .05$. Effect sizes for the correlational and hierarchical multiple regression analyses are reported (small: $r \geq .10$, $f^2 \geq .02$; medium: $r \geq .30$, $f^2 \geq .15$; large: $r \geq .50$, $f^2 \geq .35$; Cohen, 1992).

Results

Preliminary Analyses

On average, the participants scored low in avoidant and anxious attachment and high in family ritual meaning and family cohesion (Table 2 presents means, standard deviations, actual range, and Cronbach's alphas of the study variables). RM-MANOVAs revealed no significant multivariate effect of time on parents' and children's family ritual meaning, Wilk's $\lambda = .94$; $F(2,56) = 1.73$, $p = .19$ and family cohesion, Wilk's $\lambda = .99$; $F(2,56) = 0.34$, $p = .71$.

Small to large correlations were found among the main study variables at each time point (Table 2). T1 parents' avoidant and anxious attachment were significantly and positively correlated. T1 parents' avoidant attachment was significantly and negatively correlated with T2 parents'/children's family ritual meaning/family cohesion, after controlling for parents' anxious attachment. T1 parents' anxious attachment was negatively correlated with T2 parents' family ritual meaning. However, after controlling for parents' avoidant attachment, this association was no longer significant.

Hierarchical Multiple Regression Analyses

Four separate hierarchical multiple regression analyses were constructed to examine the combined contribution of T1 variables (time since primary diagnosis, parents'/children's family ritual meaning/family cohesion, parents' attachment dimensions) on T2 parents' and children's family ritual meaning and family cohesion (Table 3). Preliminary analyses of the collinearity statistics in the regression models (tolerance values and variance inflation factor) showed that multicollinearity did not compromise the interpretability of the results.

Table 2. Means, Standard Deviations, Actual Range, Cronbach's Alphas and Intercorrelations Among Study Variables for Parents and Children

Variables	Parents									Children					
	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	11	12	13	14	15
Parents															
1. T1 Avoidant attachment	–														
2. T1 Anxious attachment	.28*	–													
3. T1 Family ritual meaning	-.49** (-.47**)	-.13 (.00)	–												
4. T2 Family ritual meaning	-.58** (-.54**)	-.28* (-.15)	.71**	–											
5. T1 Family cohesion	-.53** (-.51**)	-.19 (-.05)	.62**	.58**	–										
6. T2 Family cohesion	-.69** (-.69**)	-.12 (-.10)	.45**	.58**	.68**	–									
7. T1 Age	-.08 (-.11)	.09 (.12)	-.02	.11	.08	.10	–								
8. T1 Sex (male/female)	.14 (.14)	.01 (-.04)	.01	-.05	-.20	-.14	-.03	–							
9. T1 SES (low/medium-high)	.01 (-.13)	.07 (-.14)	.05	-.02	.09	.12	-.23	-.13	–						
Children															
10. T1 Family ritual meaning	-.07 (-.02)	-.17 (-.16)	.39**	.36**	.27*	.11	-.13	.06	-.02	–					
11. T2 Family ritual meaning	-.34** (-.31*)	-.17 (-.08)	.55**	.62**	.46**	.36**	-.14	-.04	-.01	.73**	–				
12. T1 Family cohesion	-.28* (-.25-)	-.13 (-.06)	.52**	.41**	.53**	.31**	-.08	.23	.02	.54**	.54**	–			
13. T2 Family cohesion	-.46** (-.42**)	-.22 (-.11)	.56**	.58**	.56**	.51**	-.08	.01	.15	.37**	.52**	.63**	–		
14. T1 Age	-.20 (-.23)	.08 (.14)	.08	.17	.13	.19	.51**	-.05	-.24	-.29*	-.16	.05	.11	–	
15. T1 Sex (male/female)	.07 (.10)	-.07 (-.10)	-.08	.01	.08	.04	.26*	-.05	.04	.14	-.00	.22	-.04	.16	–
16. T1 Time since primary diagnosis	.23 (.19)	.20 (.14)	-.19	-.24	-.27*	-.34**	-.12	-.07	.09	-.10	-.11	-.20	-.36**	.13	-.18
Cronbach's alphas	.68	.92	.85	.82	.89	.82	–	–	–	.79	.83	.80	.83	–	–
Means	2.27	1.97	3.33	3.35	5.00	4.95	41.93	–	–	3.35	3.26	5.18	5.13	12.88	–
Standard deviations	0.99	1.40	0.56	0.49	0.84	0.73	5.81	–	–	0.47	0.52	0.62	0.70	3.40	–
Actual range	1.00-5.33	1.00-7.00	1.53-4.00	1.93-4.00	1.89-6.00	2.44-6.00	31-56	–	–	2.40-4.00	2.00-4.00	3.22-6.00	2.00-6.00	8-19	3-108

Note: T1 = Time 1, T2 = Time 2. Pearson and Spearman correlations. Values inside parentheses are partial correlation coefficients, controlling for avoidant or anxious attachment. ** $p < .01$; * $p \leq .05$; - $p < .06$.

Table 3. Hierarchical Multiple Regression Analyses for Variables Associated with T2 Parents' /Children' Family Ritual Meaning and T2 Parents' /Children' Family Cohesion

Dependent variable, steps and predictor variables	B	SE B	95% CI	B	F	df	R ²
T2 Parents' family ritual meaning							
Step 1					3.29	1,56	.06
T1 Time since primary diagnosis	-0.00	0.00	[-0.01, 0.00]	-.05			
Step 2					29.56	2,55	.52***
T1 Parents' family ritual meaning	0.49	0.09	[0.31, 0.67]	.56***			
Step 3					19.37	4,55	.59***
T1 Parents' avoidant attachment	-0.13	0.05	[-0.23, -0.02]	-.26*			
T1 Parents' anxious attachment	-0.04	0.03	[-0.11, 0.02]	-.12			
T2 Parents' family cohesion							
Step 1					7.45	1,56	.12**
T1 Time since primary diagnosis	-0.01	0.00	[-0.01, 0.00]	-.14			
Step 2					26.91	2,55	.50***
T1 Parents' family cohesion	0.36	0.09	[0.19, 0.53]	.42***			
Step 3					23.91	4,55	.64***
T1 Parents' avoidant attachment	-0.34	0.07	[-0.49, -0.20]	-.47***			
T1 Parents' anxious attachment	0.06	0.05	[-0.03, 0.15]	.12			
T2 Children's family ritual meaning							
Step 1					0.70	1,56	.01
T1 Time since primary diagnosis	0.00	0.00	[-0.01, 0.01]	.02			
Step 2					31.89	2,55	.54***
T1 Children's family ritual meaning	0.80	0.10	[0.61, 0.99]	.72***			
Step 3					21.84	4,55	.62***
T1 Parents' avoidant attachment	-0.16	0.05	[-0.26, -0.07]	-.31***			
T1 Parents' anxious attachment	0.01	0.03	[-0.05, 0.08]	.04			
T2 Children's family cohesion							
Step 1					8.24	1,56	.13**
T1 Time since primary diagnosis	-0.01	0.00	[-0.02, 0.00]	-.19			
Step 2					22.46	2,55	.45***
T1 Children's family cohesion	0.58	0.11	[0.35, 0.81]	.51***			
Step 3					14.20	4,55	.52***
T1 Parents' avoidant attachment	-0.18	0.07	[-0.33, -0.04]	-.26*			
T1 Parents' anxious attachment	-0.02	0.05	[-0.12, 0.08]	-.05			

Note: T1 = Time 1. T2 = Time 2.

*** $p \leq .001$; ** $p \leq .01$; * $p < .05$.

Parents' Family Ritual Meaning and Family Cohesion

T1 parents' avoidant, but not anxious, attachment was statistically significant and responsible for 7.6% of the additional variance of T2 parents' family ritual meaning (Cohen $f^2 = .19$), after controlling for T1 time since primary diagnosis and T1 parents' family ritual meaning. For family cohesion, after controlling for T1 time since primary diagnosis and T1 parents' family cohesion, T1 parents' avoidant, but not anxious attachment, was statistically significant and explained 14.9% of the additional variance of T2 parents' family cohesion (Cohen $f^2 = .41$).

Children's Family Ritual Meaning and Family Cohesion

T1 parents' avoidant, but not anxious, attachment was statistically significant and was responsible for 8.5% of the additional variance of their family ritual meaning at T2 (Cohen $f^2 = .22$), after accounting for T1 time since primary diagnosis and T1 children's family ritual meaning. For family cohesion, after accounting for T1 time since primary diagnosis and T1 children's family cohesion, T1 parents' avoidant, but not anxious, attachment was statistically significant and responsible for 6.8% of the additional variance of T2 children's family cohesion (Cohen $f^2 = .14$).

Mediation Analyses

T2 parents' family ritual meaning (point estimate = $-.10$; CI = $-.26, -.02$) mediated the relationship between T1 parents' avoidant attachment and T2 parents' family cohesion, after accounting for T1 parents' anxious attachment and T1 time since primary diagnosis (Figure 1a); the variance explained by the whole model was $R^2 = .57$. T2 children's family ritual meaning (point estimate = $-.09$; CI = $-.20, -.01$) mediated the relationship between T1 parents' avoidant attachment and T2 children's family cohesion, after accounting for T1 parents' anxious attachment and T1 time since primary diagnosis (Figure 1b); the variance explained by the whole model was $R^2 = .42$. Finally, we tested two equivalent models, considering T1 parents' anxious attachment as the independent variable. No indirect effects were found.

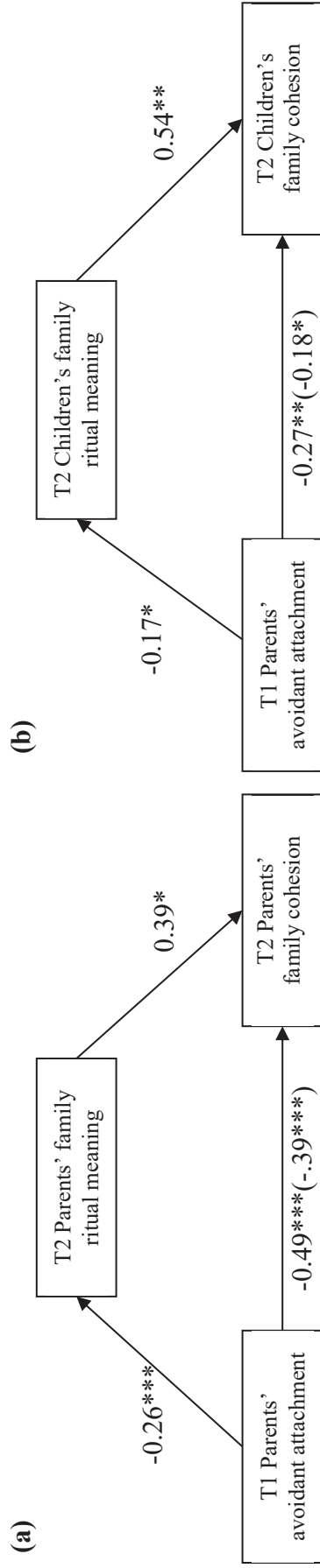


Figure 1. (a and b) Models depicting the mediating effects of T2 parents'/children's family ritual meaning on the links between T1 parents' avoidant attachment and T2 parents'/children's family cohesion, controlling for T1 parents' anxious attachment and T1 time since primary diagnosis. *Note.* The values inside parentheses represent the independent variable's direct effect on the dependent variable after controlling for the mediator. $***p < .001$; $**p < .01$; $*p < .05$.

Discussion

This study provides a novel approach to an important issue in pediatric psychology research - the impact of parents' romantic attachment on family functioning during children's cancer treatment. The main finding was that the couple's avoidant (vs. anxious) attachment was a unique risk factor for lower levels of family ritual meaning and family cohesion. Moreover, parents' avoidant attachment influenced family cohesion both directly and indirectly via its impact on the meaning of family rituals. This finding is important because attachment style is related to emotional regulation and strategies for managing stress (Bowlby, 1982). In the context of the parents' shared threat posed by a child's cancer, romantic attachment style may impact family adjustment.

More avoidant attachment among parents predicted lower levels of family ritual meaning and family cohesion. Prior cross-sectional research found support for these relationships in normative contexts (Crespo et al., 2008; Mikulincer & Florian, 1999; Pedro et al., 2015). Because individuals higher on avoidant attachment may distrust their partners' goodwill and strive to maintain emotional distance and independence (Bartholomew & Horowitz, 1991; Mikulincer et al., 2002), they might be less inclined to participate in family rituals (Crespo et al., 2008), events that promote affective expression and emotional support (Fiese, 2006). These individuals may be less likely to seek or give support (Simpson, Rholes, & Nelligan, 1992), which may help explain why they perceive family rituals occasions as less meaningful and their families as less cohesive. With regard to anxious attachment, it did not predict parents' family ritual meaning nor family cohesion in accordance with prior studies (Crespo et al., 2008; Pedro et al., 2015). Although the preliminary analysis suggested that anxious attachment could compromise family rituals, an in-depth examination of results demonstrated that avoidant attachment was a unique contributor to both decreased family ritual meaning and family cohesion.

Parents' romantic attachment influenced not only the parents' views of the family, but also their children's. Parents who scored higher in avoidant, but not anxious, attachment had lower levels of family ritual meaning and family cohesion for patients. This is consistent with previous research showing that avoidant, but not anxious, attachment has a negative impact on parenting (e.g., child care perceived as a stressful experience; Rholes, Simpson, & Friedman, 2006) and child outcomes (Edelstein et al., 2004). It is possible that parents who are avoidantly attached may transmit a more casual attitude toward family rituals to their children. In addition, they may be less likely to demonstrate commitment, help, and support to family members. Furthermore, parents, especially mothers, are known to be "kinkeepers" of rituals, that is, the people who organize and take on the most responsibility for family rituals. When parents do not endorse family rituals, the intergenerational transmission of the meaning of these events may be diminished (Fiese, 2006).

Additionally, family ritual meaning was identified as a possible mechanism through which avoidant attachment may influence family relationships; when parents scored higher on avoidant attachment, they and their children reported lower levels of family ritual meaning and, subsequently, lower levels of cohesion. Individuals higher in avoidant attachment may have learned that others are not completely reliable (Hazan & Shaver, 1987); they might prefer not to open up to others (Mikulincer & Shaver, 2012) and might avoid situations that encourage intimacy, physical contact, communication and reliance (Mikulincer & Shaver, 2007), which seem to be the basis for the formation of cohesive relationships (Mikulincer & Florian, 1999). When parents score higher on avoidant attachment, family rituals can be compromised, which can then impair family relationships, an argument in line with previous research showing that parents'/children's family ritual meaning strengthens family ties (e.g., Fiese et al., 2002; Imber-Black, 2014).

Finally, family ritual meaning and family cohesion remained constant and quite high over a 6-month period for parents and children. This finding is in contrast to the idea that serious illness may disrupt family rituals and decrease cohesion because families are overwhelmed with the new demands imposed on family members (e.g., Imber-Black, 2014). These discrepant findings may be owing to the time of assessment in this study, given that at T1, an average of 11 months had passed since the primary diagnosis. It is possible that this time frame might be enough for the majority of the families to adapt to the new demands imposed by the condition and reinforce the ritual interactions and the cohesion within the family. Future studies anticipating T1 closer to the diagnosis can further clarify the issue of stability and change of family rituals and family cohesion in pediatric cancer.

This study, while providing novel information on families whose children have cancer, presents some limitations. Although family rituals are universal family events, it cannot be assumed that the current findings from a Portuguese sample are valid for families in other cultures. Because most parents were females, caution is needed when generalizing the findings. We do not know whether the links between attachment, family ritual meaning, and family cohesion are moderated by gender. Given that the parents in this study generally scored low on both dimensions of attachment, it is not known whether the results are generalizable to clinical samples. It is also possible that answering questions about family rituals and family cohesion at T1 prompted families to recognize and preserve the meaning of family rituals and cohesive relationships. This may also help explain the stability of family ritual meaning and family cohesion. In addition, it is possible that medium and small effects remained undetected with this modest sample size (cf. Cohen, 1992). The sample size was adequate to detect large and medium effects in the regression analyses, but not large enough to detect small effects.

Moreover, nearly half of the sample was composed of low SES families. Although a previous study indicated that SES does not seem to compromise the positive contribution of

family rituals for adaptation (Santos et al., 2015), future research would benefit from a more heterogeneous distribution of SES levels. In addition, this study focused on romantic attachment. Future studies might expand the assessment of attachment to other relational domains to further understand the role of attachment in adjustment to pediatric cancer. Finally, because attachment styles are considered to be relatively stable throughout the life span (Bowlby, 1982), attachment was only measured once. Additional longitudinal studies are needed to corroborate the direction of causality between avoidant attachment and family ritual meaning and family cohesion.

The longitudinal findings have noteworthy clinical implications. Families in which parents are avoidantly attached may be deprived of the benefits of family rituals, such as group cohesion, support, or emotional expression (Fiese, 2006). For these families, psychological interventions designed to target attachment issues in couples can be useful. Recent findings with couples suggested that individuals significantly decreased in avoidant attachment after undergoing Emotionally Focused Couple Therapy (Burgess Moser et al., 2016). Additionally, our findings suggest that interventions may also focus on family rituals. Given that family rituals are potentially modifiable interactions, it is important to work with families to establish or reestablish rituals that fit their current circumstances (Buchbinder, Longhofer, & McCue, 2009; Roberts, 2003).

Overall, our results contribute to the growing body of studies (e.g., Crespo et al., 2008; Edelstein et al., 2004; Pedro et al., 2015) based on attachment theory that demonstrate the negative effects of avoidant (but not anxious) attachment in relational processes. This finding may be particularly relevant in the challenging context of pediatric cancer because people who scored high on avoidant attachment might tend to seek less support in increasingly anxiety-provoking situations (Simpson et al., 1992); hence, they and their children may be deprived of the benefits of family rituals and family cohesion when dealing with this adverse life event (Santos et al., 2015). Moreover, our findings strengthen the literature that suggests that family rituals can promote family cohesion (e.g., Fiese et al., 2002; Imber-Black, 2014). Specifically in pediatric cancer, given the close relationship between family functioning (e.g., family cohesion, family ritual meaning) and adaptation (e.g., Alderfer & Kazak, 2006; Maurice-Stam et al., 2008; Santos et al., 2015), it is crucial to identify factors that help to explain this relationship.

Funding

This research was supported by a PhD fellowship from the Portuguese Foundation for Science and Technology (SFRH/BD/80777/2011) to Susana Santos. Additional support for the preparation of this manuscript was provided from K05CA128805 (Kazak) and the Nemours Center for Healthcare Delivery Science.

Conflicts of interest: None declared.

References

- Alderfer, M. A., & Kazak, A. E. (2006). Family issues when a child is on treatment for cancer. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach*. (pp. 53-74). New York, NY: Oxford University Press.
- Bartholomew, K., & Horowitz, L. M. (1991). Attachment styles among young adults: A test of a four-category model. *Journal of Personality and Social Psychology*, *61*, 226-244. doi:10.1037/0022-3514.61.2.226
- Bost, K. K., Wiley, A. R., Fiese, B., Hammons, A., & McBride, B. (2014). Associations between adult attachment style, emotion regulation, and preschool children's food consumption. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, *35*, 50-61. doi:10.1097/01.dbp.0000439103.29889.18
- Bowlby, J. (1982). *Attachment and loss (Vol. 1) . Attachment* (2nd ed.). New York, NY: Basic Books.
- Buchbinder, M., Longhofer, J., & McCue, K. (2009). Family routines and rituals when a parent has cancer. *Families, Systems and Health*, *27*, 213-227. doi:10.1037/a0017005
- Burgess Moser, M., Johnson, S. M., Dalglish, T. L., Lafontaine, M. F., Wiebe, S. A., & Tasca, G. A.. (2016). Changes in relationship-specific attachment in Emotionally Focused Couple Therapy. *Journal of Marital and Family Therapy*, *42*, 231-245. doi:10.1111/jmft.12139
- Burwell, S. R., Brucker, P. S., & Shields, C. G. (2006). Attachment behaviors and proximity-seeking in cancer patients and their partners. *Journal of Couple and Relationship Therapy*, *5*, 1-16. doi:10.1300/J398v05n03_01
- Cohen, J. (1992). A power primer. *Psychological Bulletin*, *112*, 155-159. doi:10.1037/0033-2909.112.1.155
- Crespo, C., Davide, I. N., Costa, M. E., & Fletcher, G. J. O. (2008). Family rituals in married couples: Links with attachment, relationship quality, and closeness. *Personal Relationships*, *15*, 191-203. doi:10.1111/j.1475-6811.2008.00193.x
- Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology*, *48*, 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811
- Edelstein, R. S., Alexander, K. W., Shaver, P. R., Schaaf, J. M., Quas, J. A., Lovas, G. S., & Goodman, G. S. (2004). Adult attachment style and parental responsiveness during a stressful event. *Attachment and Human Development*, *6*, 31-52. doi:10.1080/146167303100001659584

- Fiese, B. H. (1992). Dimensions of family rituals across two generations: Relation to adolescent identity. *Family Process*, 31, 151-162. doi:10.1111/j.1545-5300.1992.00151.x
- Fiese, B. H. (2006). *Family routines and rituals*. New Haven, CT: Yale University Press.
- Fiese, B. H., & Kline, C. A. (1993). Development of Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology*, 6, 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290
- Fiese, B. H., Tomcho, T. J., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology*, 16, 381-390. doi:10.1037//0893-3200.16.4.381
- Fraley, R. C. (2016). *Relationship Structures (ECR-RS) Questionnaire*. University of Illinois at Urbana-Champaign. Retrieved from <http://internal.psychology.illinois.edu/~rcfraley/asures/relstructures.htm>
- Fraley, R. C., Heffernan, M. E., Vicary, A. M., & Brumbaugh, C. C. (2011). The Experiences in Close Relationships-Relationship Structures questionnaire: A method for assessing attachment orientations across relationships. *Psychological Assessment*, 23, 615-625. doi:10.1037/a0022898
- Hazan, C., & Shaver, P. (1987). Romantic love conceptualized as an attachment process. *Journal of Personality and Social Psychology*, 52, 511-524. doi:10.1037/0022-3514.52.3.511
- Imber-Black, E. (2014). Will talking about it make it worse? Facilitating family conversations in the context of chronic and life-shortening illness. *Journal of Family Nursing*, 20, 151-163. doi:10.1177/1074840714530087
- Kazak, A. E., Boevig, C. A., Alderfer, M. A., Hwang, W. T., & Reilly, A. (2005). Posttraumatic stress symptoms during treatment in parents of children with cancer. *Journal of Clinical Oncology*, 23, 7405-7410. doi:10.1200/jco.2005.09.110
- Kazak, A. E., Hocking, M. C., Ittenbach, R. F., Meadows, A. T., Hobbie, W., DeRosa, B. W., . . . Reilly, A. (2012). A revision of the Intensity of Treatment Rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatric Blood and Cancer*, 59, 96-99. doi:10.1002/pbc.23320
- Klassen, A. F., Anthony, S. J., Khan, A., Sung, L., & Klassen, R. (2011). Identifying determinants of quality of life of children with cancer and childhood cancer survivors: A systematic review. *Supportive Care in Cancer*, 19, 1275-1287. doi:10.1007/s00520-011-1193-x

- Klassen, A. F., Raina, P., Reineking, S., Dix, D., Pritchard, S., & O' Donnell, M. (2007). Developing a literature base to understand the caregiving experience of parents of children with cancer: A systematic review of factors related to parental health and well-being. *Supportive Care in Cancer*, *15*, 807-818. doi:10.1007/s00520-007-0243-x
- Leon, K., & Jacobvitz, D. B. (2003). Relationships between adult attachment representations and family ritual quality: A prospective, longitudinal study. *Family Process*, *42*, 419-432. doi:10.1111/j.1545-5300.2003.00419.x
- Long, K. A., & Marsland, A. L. (2011). Family adjustment to childhood cancer: A systematic review. *Clinical Child and Family Psychology Review*, *14*, 57-88. doi:10.1007/s10567-010-0082-z
- Manne, S. L., Lesanics, D., Meyers, P., & Wollner, N. (1995). Predictors of depressive symptomatology among parents of newly diagnosed children with cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, *20*, 491-510. doi:10.1093/jpepsy/20.4.491
- Markson, S., & Fiese, B. H. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of Pediatric Psychology*, *25*, 471-480. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471
- Maurice-Stam, H., Oort, F. J., Last, B. F., & Grootenhuis, M. A. (2008). Emotional functioning of parents of children with cancer: The first five years of continuous remission after the end of treatment. *Psychooncology*, *17*, 448-459. doi:10.1002/pon.1260
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1999). The association between spouses' self-reports of attachment styles and representations of family dynamics. *Family Process*, *38*, 69-83. doi:10.1111/j.1545-5300.1999.00069.x
- Mikulincer, M., Florian, V., Cowan, P. A., & Cowan, C. P. (2002). Attachment security in couple relationships: A systemic model and its implications for family dynamics. *Family Process*, *41*, 405-434. doi:10.1111/j.1545-5300.2002.41309.x
- Mikulincer, M., & Shaver, P. R. (2007). *Attachment in adulthood: Structure, dynamics, and change*. New York, NY: The Guilford Press.
- Mikulincer, M., & Shaver, P. R. (2012). Adult attachment orientations and relationship processes. *Journal of Family Theory and Review*, *4*, 259-274. doi:10.1111/j.1756-2589.2012.00142.x
- Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family Environment Scale Manual* (2nd ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.
- Nicholls, W., Hulbert-Williams, N., & Bramwell, R. (2014). The role of relationship attachment in psychological adjustment to cancer in patients and caregivers: A systematic review of the literature. *Psychooncology*, *23*, 1083-1095. doi:10.1002/pon.3664

- Pedro, M. F., Ribeiro, T., & Shelton, K. H. (2015). Romantic attachment and family functioning: The mediating role of marital satisfaction. *Journal of Child and Family Studies*, 24, 3482-3495. doi:10.1007/s10826-015-0150-6
- Preacher, K. J., & Hayes, A. F. (2004). SPSS and SAS procedures for estimating indirect effects in simple mediation models. *Behavior Research Methods, Instruments, and Computers*, 36, 717-731. doi:10.3758/BF03206553
- Price, J., Kassam-Adams, N., Alderfer, M. A., Christofferson, J., & Kazak, A. E. (2016). Systematic review: A reevaluation and update of the integrative (trajectory) model of pediatric medical traumatic stress. *Journal of Pediatric Psychology*, 41, 86-97. doi:10.1093/jpepsy/jsv074
- Rholes, W. S., Simpson, J. A., & Friedman, M. (2006). Avoidant attachment and the experience of parenting. *Personality and Social Psychology Bulletin*, 32, 275-285. doi:10.1177/0146167205280910
- Roberts, J. (2003). Rituals and serious illness: Marking the path. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy*. New York, NY: W. W. Norton & Company.
- Rourke, M. T., Hobbie, W. L., Schwartz, L., & Kazak, A. E. (2007). Posttraumatic stress disorder (PTSD) in young adult survivors of childhood cancer. *Pediatric Blood and Cancer*, 49, 177-182. doi:10.1002/pbc.20942
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2015). Family rituals and quality of life in children with cancer and their parents: The role of family cohesion and hope. *Journal of Pediatric Psychology*, 40, 664-671. doi:10.1093/jpepsy/jsv013
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Pinto, A. (2014). Intensidade do tratamento e qualidade de vida relacionada com a saúde no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 [Intensity of treatment and health-related quality of life in pediatric cancer: Findings from the Portuguese version of Intensity of Treatment Rating Scale 3.0]. *Psychology, Community & Health*, 3, 158-171. doi:10.5964/pch.v3i3.97
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of life and adjustment in youths with asthma: The contributions of family rituals and the family environment. *Family Process*, 51, 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- Simões, M. R. (1994). *Investigações no âmbito da Aferição Nacional do Teste das Matrizes Progressivas Coloridas de Raven [Raven's Progressive Matrices: Portuguese aferition studies]* (Unpublished doctoral dissertation). University of Coimbra, Portugal.
- Simpson, J. A., Rholes, W. S., & Nelligan, J. S. (1992). Support seeking and support giving within couples in an anxiety-provoking situation: The role of attachment styles.

Journal of Personality and Social Psychology, 62, 434-446. doi:10.1037//0022-3514.62.3.434

Streiner, D. L., & Norman, G. R. (2008). *Health measurement scales: A practical guide to their development and use* (4 th ed.). New York, NY: Oxford University Press.

Varni, J. W., Katz, E. R., Colegrove, R., & Dolgin, M. (1996). Family functioning predictors of adjustment in children with newly diagnosed cancer: A prospective analysis. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 37, 321-328. doi:10.1111/j.1469-7610.1996.tb01409.x

Wolin, S. J., & Bennett, L. A. (1984). Family rituals. *Family Process*, 23, 401-420. doi:10.1111/j.1545-5300.1984.00401.x

Secção VI | Family rituals when children have cancer

[História e contributo do Estudo VI]

Este é o sexto e último estudo do presente trabalho, apresentando características distintivas dos anteriores: a metodologia qualitativa e o foco nos rituais familiares conferem-lhe, porventura, o estatuto de estudo mais inovador da presente investigação. Apesar das dezenas de estudos que examinaram o impacto do cancro pediátrico na adaptação familiar, mais especificamente no funcionamento familiar (para uma revisão, consultar Grootenhuis & Last, 1997; Long & Marsland, 2011; Pai et al., 2007; Van Schoors et al., 2015), não é do nosso conhecimento a existência de estudos que se tenham focado especificamente nos rituais familiares. Porquê o foco nos rituais familiares? Se, por um lado, os rituais familiares têm sido apontados como extremamente importantes em alturas de transição e *stress* (Fiese et al., 2002), por outro, estes eventos familiares também têm sido apontados como estando particularmente sujeitos ao impacto da doença (Imber-Black, 2014). No caso do cancro, as hospitalizações frequentes, a necessidade de controlo do ambiente externo da criança e a situação de família dividida prolongada no tempo sugerem a presença de mudanças no quotidiano e nas celebrações especiais da família.

Assim, no **Estudo VI**, procurou-se contornar esta omissão na literatura e contribuir para o conhecimento atual acerca dos rituais familiares em famílias de crianças com cancro na fase de tratamento. Especificamente, procurámos compreender o que acontece aos rituais familiares e às suas funções na fase de tratamento.

Dada a natureza pioneira do estudo e à importância de aceder às significações dos indivíduos que vivenciam esta experiência, optámos por uma metodologia qualitativa, realizando entrevistas semiestruturadas a mães de crianças com cancro. Tendo em conta que pais e crianças com cancro tendem a apresentar pior adaptação na fase inicial do tratamento (Pai et al., 2007) e que para uma minoria essas dificuldades persistem no tempo (Price et al., 2016), conhecer o funcionamento familiar na fase de tratamento, ainda que de forma exploratória, poderá ter implicações clínicas relevantes, ao permitir identificar, logo numa fase inicial, o que poderá estar na base destas dificuldades.

[Nota do Investigador]

Este estudo permitiu-nos uma viagem mais profunda até a um território até então ainda inexplorado: as significações maternas sobre os rituais familiares no contexto do cancro pediátrico e suas funções. Antes de apresentar os resultados, que são apenas a ponta do

iceberg da investigação, importa refletir sobre o processo.

As entrevistas foram um espaço de partilha, no qual o investigador procurou seguir os tópicos do guião da entrevista ao mesmo tempo que deu espaço aos entrevistados para introduzirem novos temas. Assim, através de um diálogo guiado, as mães foram partilhando as suas próprias experiências. Por oposição a esta “flexibilidade ponderada”, a análise de dados foi mais “rígida”, na medida em que o investigador teve de se centrar nos dados que respondiam aos objetivos definidos para este estudo. Deste modo, a dimensão e a riqueza dos dados recolhidos e que não foram analisados (p. ex. entrevistas das mães M2, entrevistas das crianças M1 e M2) traduz-se numa sensação de tarefa inacabada que será concretizada posteriormente.

Na ótica da investigadora, o contacto com as famílias no contexto mais privado das entrevistas (por comparação ao do preenchimento dos questionários) permitiu-nos uma maior aproximação à realidade, na medida em que houve uma melhor compreensão por parte do investigador da experiência e da vivência destas famílias no contexto do cancro pediátrico. Acreditamos que esta experiência também tenha sido enriquecedora para as participantes uma vez estas tiveram a oportunidade de ser ouvidas e de deixar cair o escudo de proteção que corresponde ao comum papel do “cuidador destemido”. Adicionalmente, no nosso entender, as mães, quando vivenciam este papel de cuidador de forma tão intensa, podem ver limitada a sua perceção de identidade (p. ex. no Hospital raramente são tratadas pelo nome próprio, mas por referência aos filhos “A mãe da Ana”) pelo que as características distintivas da entrevista, um momento em que a atenção é centrada na narrativa do entrevistado, poderá também em parte explicar a aceitação e satisfação das mães em participar neste estudo.

Family Process, 2016, submitted

“Family Rituals When Children Have Cancer”

Susana Santos¹, Carla Crespo², M. Cristina Canavarro¹, Anne E. Kazak³

¹Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação, Universidade de Coimbra; ²Faculdade de Psicologia, Universidade de Lisboa; ³Center for Healthcare Delivery Science, Nemours Children’s Health System/A.I. duPont Hospital for Children & Department of Pediatrics, Sidney Kimmel Medical College of Thomas Jefferson University

Abstract

Family rituals serve important functions for families and especially in times of change and stress, including in the context of a chronic health condition. No studies have investigated what may happen to family rituals during pediatric antineoplastic treatment. This qualitative study aimed to explore the impact of pediatric cancer and its treatment on family rituals. Semi-structured interviews with 19 mothers of children ages 8-17 years old with cancer were conducted and analysed using grounded theory. The interviews revealed two main types of changes in rituals: Loss and Transformation. The Loss of Family Rituals included two subcategories (Non-attendance at Ongoing Family Rituals, Disruption of Family Rituals). The Transformation of Family Rituals included three subcategories (Readjustment of Family Rituals, Creation of New Family Rituals, Re-establishing Old Family Rituals). Seven general functions of family rituals were identified (Celebrating, Family Cohesion, Family Communication, Respite, Sense of Predictability, Sense of Security, Rhythm of Life) and five illness-related functions (Grounding in Life, Hope, Marking the Course of Treatment, Sense of Normalcy, Treatment Adherence). Although pediatric cancer may compromise family rituals (non-attendance and/or disruption) and their functions, families develop adaptive strategies (readjustment, creation, and/or re-establish) to transform rituals and facilitate their potentially protective functions. Discussion of rituals can be integrated into interventions to optimize family interactions in the adverse context of pediatric cancer, via the readjustment of existing rituals, the creation of new ones and the re-establishing of old rituals.

Keywords: Family rituals; Grounded theory; Pediatric cancer; Mothers.

Introduction

Pediatric cancer unquestionably affects both the child and the entire family. The treatment of pediatric cancer and the management of side effects include frequent clinic visits and hospitalizations as well as a subset of medical care procedures that are performed when the child is home (Vannatta, Salley, & Gerhardt, 2009). These procedures include oral medications and the implementation of recommendations to prevent infection, such as preparing all meals at home following food safety guidelines (e.g., not tasting food with fingers or utensils used to stir the food, dividing the food into individual doses), following a neutropenic diet (e.g., avoiding fruits that cannot be peeled and avoiding take-away and fast foods), maintaining protective isolation, avoiding contact with sick people/pets, and outdoor activities (Moody, Finlay, Mancuso, & Charlson, 2006). Daily routines, family roles and responsibilities undergo a major shift to accommodate the demands of cancer treatment. For example, after a child is diagnosed with cancer, one parent, typically the mother, may reduce work hours or quit employment to take on the more demanding caregiver role, whereas the other parent remains employed and manages the household and sibling care. This family reorganization has been called “living as a split family” (Long & Marsland, 2011, p. 79).

Family rituals are repeated events (e.g., dinners), or annual celebrations (e.g., religious or national holidays, birthdays), that involve two or more family members. Beyond their practical component, these events are imbued with a symbolic meaning shared by the individuals in the family (Fiese et al., 2002). Empirical studies guided by social-ecological model (Kazak, 1989) have shown the importance of family rituals in general as well as in specific situations, such as when a family member has a chronic health condition (Crespo et al., 2013; Fiese et al., 2002, for reviews). Specifically, studies of pediatric chronic health conditions have shown that family rituals are linked to positive psychological outcomes (Markson & Fiese, 2000; Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2015; Santos, Crespo, Silva, & Canavarro, 2012). Two of these studies (Santos et al., 2015; Santos et al., 2012) found a positive significant link between family ritual meaning and a positive family environment (i.e., stronger family cohesion and lower levels of family conflict) in asthma and between family ritual meaning and stronger hope and family cohesion in cancer.

Family rituals have several important functions for individuals and families. They reinforce the family identity, promote a sense of belonging, and foster cohesion (Fiese et al., 2002). They contribute to maintaining a predictable structure (Spagnola & Fiese, 2007) and foster feelings of security (Fiese, 2006) among family members. Additionally, family rituals may provide an opportunity for marking life transitions (e.g., birth of a child; Fiese, 2006; Roberts, 2003b) or for celebrating specific occasions (Imber-Black & Roberts, 1993).

Family rituals undergo changes after a diagnosis of a chronic health condition. Some families may cancel rituals because they are overwhelmed by the demands of the chronic

health condition (Fiese, Wamboldt, & Anbar, 2005; Imber-Black, 2014) or one or more family members may not be able to participate (Haugland, 2005). In addition, a comparative study suggested that families who have a child with chronic health condition organize and participate in fewer vacations compared with families of typically developing children (Rodger & Umaibalan, 2011).

Families may also keep rituals, readjust them, or create new ones. Retaining family rituals provides a sense of normalcy amid the challenges posed by the chronic health condition (for a review, see Crespo et al., 2013) and helps the family maintain a grounding in life that may otherwise be lost, at least temporarily (Roberts, 2003a). Families also used rituals as strategic resources to address specific needs (Crespo et al., 2013). For instance, Buchbinder and colleagues (2009) noted that families found ways to readjust their family rituals to accommodate new needs such as using family bedtime and morning time to share information about a parent's cancer. Additionally, rituals are opportunities for emotional support exchanges regarding the chronic health condition (Crespo et al., 2013, for a review). Families might also create new rituals to demarcate transitions in the course of a illness and its treatment, such as special rituals to mark the end of the cancer therapy (Roberts, 2003a). However, a study comparing families who have a child with a chronic health condition and those who do not, did not find differences in family rituals (Markson & Fiese, 2000). In addition, a longitudinal study found that family rituals were stable across treatment (Santos, Crespo, Canavarro, & Kazak, 2016).

In summary, although family rituals may be jeopardized when a chronic health condition occurs, the findings from empirical studies are mixed. Methodological issues may help explain this inconsistency, namely small sample sizes (Rodger & Umaibalan, 2011) and the long period of time between diagnosis and the time of evaluation (Markson & Fiese, 2000; Santos et al., 2016), given the importance of the crisis phase (Rolland, 2012).

No study so far has specifically examined how parents perceive and attribute meaning to family rituals after their child has been diagnosed with cancer. There is a need for qualitative studies in this area, a methodology that is well positioned to both study unexplored phenomena (Strauss & Corbin, 1998) and to understand family processes (Daly, 2007). The present research used in-depth semistructured interviews to explore what happens to family rituals (and their functions), as perceived by mothers of the child with cancer undergoing cancer treatment.

Methods

Participants

Nineteen mothers, all Caucasian, who ranged in age from 33 to 54 years old (median = 43) were participants. The median age of the children with cancer was 13. The majority of the mothers ($n = 15$; 78.95%) were in intact nuclear families and had other children ($n = 14$;

73.68%). Two participants were living with extended family in the household. The time since diagnosis ranged from 1 to 4 months ($M = 2.92$; $SD = 0.75$), and the mean number of days of inpatient admissions was 25.84 ($SD = 23.02$). Additional sociodemographic and clinical characteristics of the sample are provided in Table 1.

Table 1. Sociodemographic and Clinical Characteristics of the Sample
($N = 19$ mothers)

Mothers', families' and children's characteristics	<i>n</i>	%
Mothers		
Marital status		
Married	16	84.21
Divorced	3	15.79
Educational attainment		
Elementary school	2	10.53
Middle school	8	42.10
High school	7	36.84
College degree	2	10.53
Work status		
Currently employed	5	26.32
Leave for a sick relative	10	52.63
Unemployed	4	21.05
Families		
Family composition		
Intact	15	78.95
Foster	1	5.26
Single	3	15.79
Socioeconomic status ^a		
Low	6	31.58
Medium	10	52.63
High	3	15.79
Children		
Age-group		
Children (8-12 years)	8	42.11
Adolescents (13-17 years)	11	57.89
Sex		
Male	7	36.84
Female	12	63.16
Malignancy		
Leukemia	8	42.11
Hodgkin lymphoma	6	31.56
Others	5	26.32
Intensity of treatment ^b		
Least/moderately intensive	6	31.58
Very/most intensive	13	68.42

Note: ^aThe SES of each family was classified in three levels according to an accepted classification system for the Portuguese context, that taken to account data from both parents' job and educational level. ^bThe intensity of treatment was classified in four levels using the Portuguese version of the Intensity of Treatment Rating Scale 3.0 (Kazak et al., 2012).

Procedures

The study was approved by the Ethics Committees of three Portuguese public hospitals (blind). A purposive sampling procedure (Patton, 2002) was used to select the participants according to the following criteria: being the mother of a patient aged 8 to 20 years old who was diagnosed with cancer, any type, between 1 and 4 months previously, and undergoing antineoplastic treatments. The participants were approached at the hospital by the research assistant, who explained the study and invited the mothers to voluntarily participate in an interview; all agreed to participate. After obtaining written informed consent, the audiotaped interview was conducted in a separate room at the hospital. The first author conducted the interviews between July 2012 and September 2013. Saturation was achieved (Strauss & Corbin, 1998) after the 16th participant was interviewed.

Measures

A script for an in-depth semi-structured interview was developed specifically for this study. The interview focused on the mothers' perceptions of their family's rituals (e.g., general description, continuity and disruption after pediatric cancer diagnosis). Although family rituals are part of the everyday life of families, the concept of "family rituals" is not commonly used in the Portuguese language. Thus, given that some participants might not be familiar with this concept, a brief definition of family rituals was provided at the beginning of each interview: "Family rituals are special moments when the family is reunited and that have a special meaning for them. These moments can happen every day, once a week, or once a year and might include some or all the members of the nuclear family and, sometimes, members of the extended family. Some examples are weddings, birthdays, Christmas, Easter or holidays and more frequent occasions such as dinnertime or weekends". The interviews lasted between 36 and 108 minutes ($M = 73.01$).

Data analysis

The interviews were transcribed verbatim. Data management and analysis were supported by QSR NVivo 10 software (QSR International, 2012). A grounded theory approach was used given the exploratory nature of this study inductively creating new information from the data (Strauss & Corbin, 1998). The data analysis used sentence-by-sentence coding. Grounded theory involved open coding, in which the data were divided into smaller components (i.e., text units) and examined; axial coding, in which connections were made between these components to create broader themes or "codes"; and selective coding, in which themes were organized conceptually to form a core category. Although the coding process was framed by three progressive stages, in practice, we moved forward and backward and constantly reexamined the components, themes and categories. Throughout the coding process, the constant comparative method was used to identify patterns of responses from

the participants (Strauss & Corbin, 1998). In addition, notes were written to register possible links among themes implied by the participants' descriptions. The first author read each transcript and coded the data under the supervision of a faculty member (second author). The validity of the data was enhanced by an audit trail and an external auditor who examined the process and the product of the inquiry (Creswell & Miller, 2000).

Results

The analyses identified a variety of changes in family rituals following the pediatric cancer diagnosis. These changes were grouped into two categories: Loss of Family Rituals (that included two subcategories) and Transformation of Family Rituals (that included three subcategories). In addition, our data allowed finding 12 perceived functions of family rituals (seven general and five illness-related functions; see Table 2 for a description of the categories and subcategories). Next²², the two categories of changes in family rituals will be presented in detail, including the reasons for change and how these changes interfered both positively and negatively in the functions of family rituals (Figure 1).

Loss of Family Rituals

Loss of Family Rituals (16) included two subcategories: Non-attendance at Ongoing Family Rituals (12) and Disruption of Family Rituals (11).

Non-attendance at Ongoing Family Rituals.

Twelve mothers described changes in participation in ongoing family rituals based on the decision of the parents. The child (9) or, sometimes, both the mother and the child (2) were absent from family rituals such as mealtimes (6), weekend activities (5) and/or annual celebrations (2). In addition, everyone in the nuclear family was absent from cousins' or uncles' birthdays (2). Mothers identified the causes of non-attendance at ongoing family rituals as being related to cancer treatment (1) and side effects (11). One mother justified not attending weekend activities (e.g., leisure) due to hospitalization for chemotherapy. With regard to side effects, one mother noted that the patient was unable to participate in some family rituals because they felt fatigued and the other ten mothers justified the patient non-attendance due to recommendations to prevent infections arising from the compromised immune system after chemotherapy. For instance, one mother said, *For example, now it's not the four of us at the table because C. has to be isolated in his bedroom* (M16).

Participants reported that non-attendance at rituals of one or more family members had negative consequences for some of its functions (Table 3): threatened Family Cohesion (12); threatened Family Communication (6); endangered the Respite (4) associated with rituals; and interfered with Celebrating (3).

²² In this section, categories resulting from the qualitative analysis are always followed by brackets showing the number of participants coded in each category to present a relative indicator of the category saturation. Moreover, participants' quotes (translations from Portuguese) are identified by the following: the letter M or F followed by a number represents the patient's sex and age respectively; the letter S followed by the number represents the sibling's age, if applicable. As an example, the identifier "F9; S10" indicates a quote by a mother of a 9-year-old female patient who has one sibling aged 10 years old.

Table 2. *Description of the Categories and Subcategories*

Changes in family rituals	Loss of family rituals	Non-attendance at ongoing family rituals	Refers to situations in which someone who was expected to be present in a specific family ritual did not participate in that event.
		Disruption of family rituals	Refers to the non-occurrence of habitual family rituals.
	Transformation of family rituals	Readjustment of family rituals	Refers to the adaptation of ongoing family rituals.
		Creation of new family rituals	Refers to the establishment of meaningful new rituals.
		Re-establishing old family rituals	Refers to the restoration of old family rituals that had ceased.
Functions of family rituals	General functions	Celebrating	Refers to the revelry associated with special dates and moments of family life.
		Family cohesion	Refers to the reunion of family members associated with feelings of union.
		Family communication	Encompasses exchanges of information and/or feelings (e.g., comfort, support).
		Respite	Refers to the idea of breaking routine and unwinding (e.g., outings, playing pranks), easing stress, and breaking away from obligatory commitments.
		Sense of predictability	Involves the repetition of rituals over long periods of time, which allow family members to know what to expect at specific moments.
		Sense of security	Refers to perceived protection (physical and spiritual), which can be conveyed by displays of affection.
		Rhythm of life	Denotes the time reference provided by regular transitions; during hospitalizations, for example, rituals might allow family members to distinguish between weekdays and weekends.
	Illness-related functions	Grounding in life	Refers to the inclusion of all aspects of life rather than an exclusive focus on the disease.
		Hope	Refers to looking to the future for positive expectations that the family will be able to perform exactly the same family rituals in the future.
		Marking the course of treatment	Occurs when rituals mark transitions associated with treatment.
		Sense of normalcy	Refers to family members' ability to compare their present life with life before the diagnosis.
		Treatment adherence	When these events contribute to compliance with a medical treatment regimen (e.g., the administration of medication or finding ways to encourage the child to eat).

Table 3. Exemplar Quotes for Each Function of Family Rituals

Loss of family rituals (16)	Non-attendance (12)	Family cohesion (12)	↘ One mother reported that the patient’s sibling commented on changes in the family interaction: <i>When D. is home and in isolation, it’s tougher. In the beginning, his sister even said, “Now the family is never together at dinner”. She explained, D. eats in his room and I do too, to support him, but I must sit far away. And then I quickly come back to the kitchen to finish dinner with my husband and my daughter</i> (M11; S12).	
		Family communication (6)	↘ <i>Our family has the habit of talking about the day at dinner time; now we’re going back to the same system, but when D. has to stay isolated in his bedroom, it’s very sad</i> (M14; S4).	
		Respite (4)	↘ <i>I haven’t taken B to walk, but I’ve taken her brother out to unwind a bit.</i> (F9; S10)	
		Celebrating (3)	↘ <i>It’s one less happy birthday E.’s going to sing, it’s one less cake he’ll get to cut, but it’s the path we have to tread</i> (M9; S19).	
	Disruption (11)	Family cohesion (11)	↘ <i>It was so special, the three of us together, I loved those moments, and we haven’t had them in quite a while</i> (M10)	
		Sense of predictability (10)	↘ <i>On my birthday we always used to have dinner at my mum’s with my siblings. This year, we didn’t go</i> (M11; S12).	
		Respite (9)	↘ <i>Once in a while we would do things without thinking about the stuff we had to do at home and to get out of the routine. Those are the type of rituals which fulfil us, and I now miss.</i> (F10; S6).	
		Celebrating (5)	↘ <i>We no longer have parties. We and everyone else [extended family], we aren’t in the mood</i> (F10; S6)	
			The rhythm of life (2)	↘ <i>We have lost track of time because there are no weekends, no vacation, no parties, not anymore. At this point... I know I have to come [to the hospital] this day to do this, that day to do that</i> (F10; S6).
	Transformation of family rituals (19)	Readjustment (19)	Family Cohesion (19)	↗ <i>Just yesterday we got together, but they [extended family] respected everything. They made the food from scratch and didn’t kiss her; they shook her hand and washed her hands right after</i> (F15).
			Celebrating (8)	↗ <i>It was just us [limited to the closest family], but there was cake, there was champagne, we sang “Happy birthday”</i> (F16).
			Family Communication (10)	↗ <i>When M. had to have dinner in his bedroom, I would leave the door open and kept asking questions. Of course it wasn’t the same, but I always tried to talk</i> (M10).
			Respite (9)	↗ <i>My middle daughter is very funny, and so she starts telling her adventures. She leaves the table and starts doing her impressions and imitations. It’s always lively. We play with each other, even now</i> (F14; S16 & S19)
			Sense of predictability (4)	↗ <i>We are never alone at the weekend, even now. When L. is in isolation, he eats in the kitchen with fewer people and we ate in the dinner room and he says bye through the glass</i> (M8; S13).

↘ Interfered negatively in the functions of family rituals. ↗ Interfered positively in the functions of family rituals.

Disruption of Family Rituals

Eleven mothers reported disruption of family rituals based on the decision of the parents (11) and the extended family (3). The disruptions occurred during weekends (9), annual celebrations (3), vacations (4), Easter (1), a traditional street festival (1), and Valentine’s Day (1). The disruption affected not only the nuclear family (9) but also the extended family (6).

According to the participants, reasons for the disruption of family rituals were related to side effects (10), cancer treatment (4), and the emotional climate in the family (3). Regarding the side effects, ten mothers indicated that the family did not perform some family events because the child was unable to participate due to the need to prevent infections by avoiding outdoor activities and meals, and direct exposure to the sun. One mother said, *We haven't gone on picnics because M. can't have lunch out! I have to be careful with food* (F10; S6). With regard to the cancer treatment, four mothers noted that family events clashed with the patient's hospitalization or clinical appointments. One mother explained, *On Sundays we used to have lunch with my sister and a friend; lately, we haven't done it because K. is hospitalized.* (F17; S18). Considering the emotional climate in the family, three mothers indicated that a negative climate was the reason the extended family cancelled the family rituals. One mother said, *I clearly remember my sister saying, "There's no birthday!" I didn't even say anything because that was the overall feeling. As we felt it, so did she; we weren't in the mood to celebrate* (F10; S6).

The disruption of family rituals had negative implications for some of its functions (Table 3): affected Family Cohesion (11); threatened the Sense of Predictability (10) associated with rituals; compromised the Respite (9) associated with rituals; interfered with the Celebrating (5); threatened the Rhythm of Life (2) associated with rituals.

Transformation of Family Rituals

Transformation of Family Rituals (19) included three subcategories: Readjustment of Family Rituals (19), Creation of New Family Rituals (7), and Re-establishing Old Family Rituals (3).

Readjustment of Family Rituals.

All families described alterations in some of the usual family rituals. These alterations occurred during mealtimes (8), weekends (8), annual celebrations (8), vacations (1), religious holidays (6), and in other contexts (2). The decision to readjust a specific ritual, even if circumstances were not ideal (e.g., clinical impediments), was mainly the mother's (19). For instance, one mother said, *I think that if we want to do things, we find a way around it [treatment and side effects]. For example I can't celebrate my birthday at restaurant because K. is in isolation, but I can celebrate at home* (F14; S16 & S19). The decision was also made by the patient (5), particularly when the mother was hesitant due to her own mood. One mother said: *I didn't feel like celebrating. And then I stopped to think for a while, and I realized that I should make an effort for K., she wants to celebrate* (F14; S16 & S19).

The readjustments of ongoing family rituals were linked to side effects (14), mother's work leave (3) cancer treatment (3), and illness (1). One mother noted that her daughter couldn't tolerate a ritual, so they reduced its duration: *We went for coffee, but only for a little while because K. can't walk a lot* (F17; S18). The other 13 mothers indicated that

neutropenia and the subsequent recommendations to prevent infection (e.g., avoid outdoor activities or contact with sick people, follow food safety guidelines or protective isolation) as reasons for readjusting family rituals. For instance, one mother, referring to a traditional street festival, reported, *We have tried to do some things, like Saint John celebrations. We did it at home [the tradition was celebrated in the street], but Mary can't eat barbecue [tradition], so we used the oven. We did what we could, and we still celebrated* (F10; S6). Another mother explained the strategy adopted to prevent her child from having meals alone in the bedroom: *When K. was isolated, she ate in the same room with us but at another table, so we could maintain a safe distance and still have her there* (F17; S18). Not all changes involved reducing the duration and frequency of family events. Three mothers indicated that they tried to assure that rituals were maintained in the face of variable schedules during the week. *Dinner wasn't daily because I worked shifts. Now it's daily because I'm at home, right? I stopped working when K. became sick* (F14; S16 & S19). With regard to cancer treatment, specifically the frequent clinic visits three mothers changed their ongoing family rituals. One mother said, *that vacation week in Bragança [a city 155 miles from the hospital] was cancelled because K. had a series of appointments, but we adjusted. We went out, had a picnic—it was as if we did go to Bragança* (F14; S16 & S19). Finally, considering the illness, one mother said that the family adapted but maintained vacations: *She was diagnosed a week before we went on vacation (...) with some limitations, namely K.'s mobility, but we went on vacation abroad* (F14; S16 & S19).

The families maintained specific family rituals, although they may be readjusted (e.g., change the location or limit the number of participants), because they realized how important these events were to: promote Family Cohesion (19); fostering Celebrating (8) special dates as they did before; enabled the flow of Family Communication (10); enjoy Respite (9) associated with ritual occasions; produced a Sense of Predictability (4); provide a Sense of Normalcy (3); Mark the Course of the Treatment (1); develop Hope (1); maintain a Grounding in Life (3) that contributed to the well-being of the patient and the entire family (Table 3 and Table 4).

Creation of New Family Rituals.

Seven mothers shared the creation of new family rituals such as morning and bedtime rituals (4), the “patient’s menu”, that is the patient chose the meals as if he was in a restaurant (3), celebrations associated with treatment (1), family prayer (1), buying a special gift (1), and a new bedtime ritual of “being with the angels” (1). The decision to create family rituals was made by the mother (6) or the patient (2). The mothers and the patients discussed their motivations for creating new family rituals to address new needs (7).

Participants reported that the creation of new family rituals had positive consequences (Table 4): to promote Family Cohesion (7); to promote a Sense of Security (4), contributed to Treatment Adherence (4); to Mark the Course of the Treatment (1).

Re-establishing Old Family Rituals.

Three mothers reported that they recovered old family rituals to address new needs (3), namely, bedtime (2) and bath time rituals (1), following a request from the patient. One mother said, *In adolescence there was a phase when that stopped. Now with S.'s health problem, he needs that again. He is the one who calls us!* (M16).

Participants reported that re-establishing old family rituals had positive consequences (Table 4) such as: promote Family Cohesion (3); improved the Sense of Security (2); reinforced the Family Communication (1); contributed to Treatment Adherence (1).

Table 4. Exemplar Quotes for Each Function of Family Rituals (continued)

Transformation of Family Rituals (19)	Readjustment (19)	Sense of normalcy (3)	↗	<i>There were restrictions, but we get around it. It's not worth enclosing ourselves. We continue to have a relatively normal life</i> (F13, S7).
		Mark the course of the treatment (1)	↗	<i>Prior to her son's cancer diagnosis, this ritual was only performed to celebrate special occasions (such as when a child first met his or her foster parents or met the biological sisters; this had been labeled the "park of the 1st day" by the family), but after diagnosis, the family extended its application and function to Mark the Course of the Treatment: Before starting the new treatment cycle, D. said, "Mum, stop by the park of the 1st day" (M11; S12).</i>
		Hope (1)	↗	<i>Now we do not go to the beach, but even stopping the car in front of the sea [readjustment of family ritual: just looking to the sea] and looking at it—for him, that's very important. It makes him believe that tomorrow he is going to be able to do the same things again, you know? He got a lot stronger! (...) He said, "Mum, we have been so happy here", and I said, "Yes, we will return to it" (M11; S12).</i>
		Grounded in life (3)	↗	<i>It was important to go on vacation because we were going to stay here for 15 days without knowing the results; the anguish would be worse</i> (F14; S16 & S19).
		Family Cohesion (7)	↗	<i>Even two days ago, M.'s brother fell asleep on my lap, something I didn't used to allow, but right now I do because it feels good since I don't spend a lot of time with him</i> (F10; S6)
	Creation (7)	Sense of Security (4)	↗	<i>Since he was diagnosed I haven't left L.'s side. I always sleep with him. I feel safer, and he likes it too</i> (M8; S13).
		Treatment Adherence (4)	↗	<i>The only new thing I do to spoil A. is make her breakfast in bed and prepare her first dose of medication</i> (F16).
		Mark the Course of the Treatment (1)	↗	<i>He said, "It will be 3 months since my surgery, everything is going well; we need to have a party. If I can and if the doctor says it's okay, you'll invite the whole family and bake the cake I like" (M8; S13).</i>
	Re-establishing (3)	Family Cohesion (3)	↗	<i>If I got home and P. was asleep, I would be disappointed. That way I can still spoil him a bit—all those things I didn't get do while I was working</i> (M11; S18 & S22).
		Sense of Security (2)	↗	<i>B. sleeps with me; she doesn't want to sleep alone! She wants to feel cuddled. I think she feels a lot safer</i> (F9; S10).
		Family Communication (1)	↗	<i>S. calls us to sit next to him and talk</i> (M16).
		Treatment Adherence (1)	↗	<i>P. is always waiting for me. He only falls asleep after I give him his medication and I put lotion on him</i> (M11; S18 & S22).

↗ Interfered positively in the functions of family rituals.

Discussion

Family Rituals During the First Four Months After Diagnosis

In line with theory (e.g., Fiese, 2007; Kazak, 1989) and a large body of evidence (e.g., Pai et al., 2007), the current findings show that pediatric cancer affects family functioning, specifically family rituals and their functions. Nonetheless, in the adverse context of pediatric cancer, families still engaged in family rituals and benefited from the protective functions associated with these events. The findings of the current study suggest that living through the non-normative condition of pediatric cancer provides challenges as well as opportunities for the ritual life of families.

On the one hand, families reported loss associated with family rituals due to non-attendance by specific members or the disruption of these events altogether. Regarding non-attendance, these findings show that the absence of some of the family members due to side effects and cancer treatment affects not only the patients but also the other family members and the family as a whole. It might be that when family members are not present, the symbolic meaning of the family rituals is compromised, which may interfere with the family's attempts to preserve their identity and the sense that "this is who we are" (Fiese et al., 2002, p. 382). In addition, some mothers reported the disruption of family rituals. Prior studies have also found support for this change in situations in which there were parental health problems, such as cancer and alcohol abuse (Buchbinder et al., 2009; Haugland, 2005). Some families might have been overwhelmed by the demands of pediatric cancer and thus had to sacrifice some of their family rituals (Imber-Black, 2014). Although the reasons for disruption were mainly practical (that is, due to treatment and its side effects), mothers also mentioned that a more negative environment in the family discouraged certain rituals. Rituals convey a link between the past, the present and the future, and it may be especially difficult for families to compare the experience of rituals during the disease to previous "care-free" occasions when the child was healthy. Additionally, the setting (e.g., vacations) in which the disruption occurred suggests that parents might let go of family rituals that they consider less essential (DeGrace, 2004; Rodger & Umaibalan, 2011).

On the other hand, families reported transformations of family rituals that occurred via their readjustment, the creation of new rituals, and re-establishing old ones. Van der Hart (1983) indicated that family rituals have both closed and open parts. The former refers to the core of rituals that cannot be changed, and the latter refers to aspects that can be changed without altering the meaning of these interactions. Given that individuals and the family change over the life cycle and circumstances, the flexibility/malleability to readjust rituals and to create new ones is necessary for family well-being (Roberts, 2003b). In terms of readjustment, which has also been identified in previous research (Buchbinder et al., 2009), all families used this strategy for some of their family rituals. This finding strengthens the idea that family rituals are creative acts (Cheal, 1988) that can be altered in a way that

meets the new contexts (i.e., illness, treatment and its effects) without losing their emotional significance. In addition, some mothers reported benefits from the adverse situation, such as having more time for family rituals (i.e., due to the mother's work leave; Buchbinder et al., 2009), which may reflect changes in life priorities after diagnosis.

Moreover, some families demonstrated the capacity to create new family rituals (Wolin & Bennett, 1984). The creation of new rituals may serve to respond to new situations and needs (Imber-Black, 2014), such as marking treatment milestones and facilitating medication intake, a finding that has been documented in the adult cancer literature (Buchbinder et al., 2009). The re-establishment of old family rituals is a new finding in our study. Given that pediatric cancer, particularly when associated with more intense treatment, appears to increase children's vulnerability to distress (Robinson, Gerhardt, Vannatta, & Noll, 2007), re-establishing old family rituals may be important to address needs that resurface in this non-normative situation, such as the increased need for the child to feel safe and secure. In fact, Spanola and Fiese (2007) suggested that rituals may be reorganized in the service of the needs of one child. In sum, although it is expected that old rituals will be replaced with new ones throughout the course of life (Fiese, 2006), in specific situations, it might also be important for families to recover old rituals.

Mirroring the systemic principle of multifinality, we noted that when faced with the same constraints such as recommendations to prevent infections associated with side effects, 16 families lost some rituals (e.g., deprived the patient of eating with the family), all demonstrated the ability to transform some family rituals (e.g., placing two dinner tables in the kitchen to prevent the child from having meals alone in the bedroom). Finally, similar to previous studies (e.g., Hildenbrand, Clawson, Alderfer, & Marsac, 2011), our findings show that the treatments and side effects rather than the illness itself were the main factors that caused changes in family interactions.

Functions of Family Rituals

Family rituals had important functions for families, such as fostering celebrating, family cohesion, family communication, respite, a sense of predictability, a sense of security, the rhythm of life, grounding in life, hope, marking the course of treatment, a sense of normalcy, and treatment adherence. Our findings expand current knowledge by showing that sacrificing family rituals through their disruption (Fiese et al., 2002; Imber-Black, 2014) and also through the non-attendance of a family member can compromise the family's cohesion. Although expectations for attendance have become increasingly more flexible because of shifting work schedules and after-school activities (Fiese, 2006), the non-normative character of pediatric cancer (Rolland, 2012) might justify the relevance of attendance to family cohesion as demonstrated in our findings. In addition, both non-attendance and disruption threaten the time for celebrating and respite. These two functions are associated with a

sense of ease and relaxation that can be difficult to achieve when this events do not happen or when one of the family members has not be able to participate due pediatric cancer. According to Imber-Black and Roberts (1993), celebrating, one of the key functions of rituals, may not occur if family members feel anxious or exhausted, which might discourage certain rituals. Non-attendance at family rituals also threatens the perception of family communication. Finally, the disruption of family rituals negatively interferes with the rhythm of life (Imber-Black & Roberts, 1993) and the sense of predictability (Roberts, 2003b). Although these two functions are separate, both highlight the expectations associated with rituals. Their interruption may generate feelings of alienation and perceptions of lost control.

With regard to the transformation of family rituals, according to previous studies (Fiese, 2006; Santos et al., 2015), “active” approaches to maintain family rituals (i.e., readjust, create, and re-establishing) foster family cohesion. Previous research (Buchbinder et al., 2009) has shown that the readjustment of family rituals promotes family communication, particularly by providing expression for strong emotions; our study showed that both readjustment and re-establishing old family rituals had a positive influence on family communication. This is especially relevant due to the threat associated with pediatric cancer (Roberts, 2003b). When families readjust their rituals, these readjustments allowed them to celebrate (Imber-Black & Roberts, 1993), to enjoy respite and to experience a sense of predictability (Roberts, 2003b; Spagnola & Fiese, 2007). Congruent with a previous study (Santos et al., 2015), the readjustment of family rituals might strengthen hope in family members. Rituals have been known to connect the past, present and, future (Fiese, 2006). In the current study, readjusting family rituals (“even stopping the car in front of the sea and looking at it”) can provide an opportunity to recognize past legacies (“mum, we have been so happy here”) and look to the future for hope and change (“makes him believe that tomorrow he is going to be able to do the same things again”). In line with previous research (Buchbinder et al., 2009; Crespo et al., 2013), readjusting family rituals might help to maintain a sense of normalcy, bridging the family’s present with their lives before the onset of pediatric cancer. Carrying out their habitual activities might be a way for a family to “put the disease in its place” (Steinglass, 1998, p.62) by being grounded in life instead of focusing exclusively on the disease/treatment (Roberts, 2003a). It is interesting to note that the promotion of a sense of security, one of the main functions of rituals (Fiese, 2006; Mead, 1973), and the facilitation of treatment adherence only emerged when participants described the creation of new rituals and the re-establishing of old family rituals. It seems that in times of real threat that endanger a family member’s survival, the necessity of addressing basic needs such as security becomes more pressing. In addition, family rituals might arise spontaneously to meet specific functions such as medication intake and can thus facilitate treatment adherence and other recommendations. Finally, the findings from this study also provide support for previous investigations (Roberts, 2003a) that have shown that the

readjustment of ongoing family rituals and the creation of new ones might help patients and their families to mark the course of the treatment, such as marking chemotherapy cycles and successful surgery. This function might help families provide a sense of orientation in time and space, which contributes to regaining a certain sense of control in an uncertain situation (Roberts, 2003a).

Limitations and Directions for Future Research

Family rituals are collective family events that offer a window into the family life, where mothers usually play the role of “kinkeepers” (Fiese, 2006). Despite acknowledging the role of mothers, our research is limited by the exclusive focus on the narratives of mothers. It would be an advantage for future studies to include other family members (e.g., fathers or siblings). Additionally, the majority of our sample underwent very/most intensive treatments that entailed a high risk of infection and possible inpatient admissions (Mor et al., 2011). Future research should focus on families of patients with least/moderately intensive treatments that might follow less restrictive dietary guidelines and behaviour recommendations to prevent infections (Moody et al., 2006). These less intensive treatments may have less impact on family rituals. Additionally, although hospitals in Portugal follow international guidelines for treatment (SIOPE & JKF, 2009), cross cultural research may be especially illuminating. Qualitative studies with a longitudinal design would be especially informative regarding the course of changes in family rituals after the initial diagnosis of cancer. Finally, given the innovative focus of this research, it is important to contrast these findings with those of quantitative designs using larger samples. Specifically, our study noted the need to create assessment instruments, such as a complementary module to the Family Ritual Questionnaire (Fiese, 2006), to better understand the changes that occur in rituals after the diagnosis of pediatric cancer.

Clinical Implications

Family rituals are useful avenues for intervention with families (Fiese, 2007) because these family interactions can potentially be modified. At the specific level of clinical work with families facing pediatric cancer, with regard to loss of family rituals, interventions that call attention to the impact of non-attendance and disruptions to the entire family might be helpful. When redefining their ritual lives, some families may benefit from identifying whether there are family rituals to which they ascribe more meaning and that they would like to readjust (Fiese, 2007). Although rituals cannot be prescribed because their meaning relies heavily on their idiosyncrasy, it is important to ensure that everyone can participate and that the requirements for these events do not conflict with the demands of the illness/treatment. Although some families naturally readjust rituals, others may need help to modify rituals and to preserve the key aspects of rituals that hold meaning. A balance between rigidity and flexibility with regard to innovation and creativity might be helpful in specific situations (van

der Hart, 1983). For instance, during hospitalizations, families might use telecommunications (open parts of rituals) to establish contact (closed parts of rituals) during key events such as dinnertime.

Regarding the transformation of family rituals, clinical intervention can target the optimization of existing family rituals and their functions. For instance, interventions might help families to view family rituals as opportunities for participation in the family's health, such as including taking medications during mealtimes (Crespo et al., 2013; Fiese, 2007). In addition, encouraging the experiences of preexisting key family rituals such as birthdays or dinnertime in treatment settings might provide a sense of normalcy and allow less attention to be focused on the disease. At the broader systemic level, it seems important for treatment settings to be "ritual friendly". The contribution of health care institutions to the creation of family rituals to mark the course of treatment (e.g., presenting a diploma after the patient completes each chemotherapy cycle) would be beneficial to provide children and their families with a sense of control, help them to orient in time during the treatments (Roberts, 2003a) and contribute to facing the future with hope (Santos et al., 2015).

This qualitative study provided evidence of how pediatric cancer affects family rituals and their functions. The findings identified the importance and the influence of family rituals for family life, particularly in families under stress (Markson & Fiese, 2000; Santos, Crespo, Canavarro, Alderfer, & Kazak, in press). Interventions that aim to encourage families to transform family rituals under adverse conditions and that show individuals how to take advantage of these rituals to strengthen their family are especially relevant in pediatric cancer.

Funding

This research was supported by a PhD fellowship from the Portuguese Foundation for Science and Technology (SFRH/BD/80777/2011) to Susana Santos. Additional support for the preparation of this manuscript was provided from K05CA128805 (Kazak) and the Nemours Center for Healthcare Delivery Science.

Conflicts of interest: None declared.

References

- Buchbinder, M., Longhofer, J., & McCue, K. (2009). Family routines and rituals when a parent has cancer. *Families, Systems & Health, 27*, 213-227. doi:10.1037/a0017005
- Cheal, D. (1988). The ritualization of family ties. *American Behavioral Scientist, 31*, 632-643. doi:10.1177/0002764288031006003
- Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kielpikowski, M., Pryor, J., & Feres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology, 48*, 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811
- Creswell, J. W., & Miller, D. L. (2000). Determining validity in qualitative inquiry. *Theory Into Practice, 39*, 124- 130. doi:10.1207/s15430421tip3903_2
- Daly, K. J. (2007). *Qualitative methods for family studies and human development*. Thousand Oaks, CA: SAGE Publications, Inc.
- DeGrace, B. W. (2004). The everyday occupation of families with children with autism. *The American Journal of Occupational Therapy, 58*, 543-550. doi:10.5014/ajot.58.5.543
- Fiese, B. H. (2006). *Family routines and rituals*. New Haven, CT: Yale University Press.
- Fiese, B. H. (2007). Routines and rituals: Opportunities for participation in family health. *OTJR: Occupation Participation and Health, 27*, 41S-49S. doi:10.1177/15394492070270S106
- Fiese, B. H., Tomcho, T. J., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology, 16*, 381-390. doi:10.1037//0893-3200.16.4.381
- Fiese, B. H., Wamboldt, F. S., & Anbar, R. D. (2005). Family asthma management routines: Connections to medical adherence and quality of life. *Journal of Pediatrics, 146*, 171-176. doi:10.1016/j.jpeds.2004.08.083
- Haugland, B. (2005). Recurrent disruptions of rituals and routines in families with paternal alcohol abuse. *Family Relations, 54*, 225-241. doi:10.1111/j.0197-6664.2005.00018.x
- Hildenbrand, A. K., Clawson, K. J., Alderfer, M. A., & Marsac, M. L. (2011). Coping with pediatric cancer: Strategies employed by children and their parents to manage cancer-related stressors during treatment. *Journal of Pediatric Oncology Nursing, 28*, 344-354. doi:10.1177/1043454211430823
- Imber-Black, E. (2014). Will talking about it make it worse? Facilitating family conversations in the context of chronic and life-shortening illness. *Journal of Family Nursing, 20*, 151-163. doi:10.1177/1074840714530087

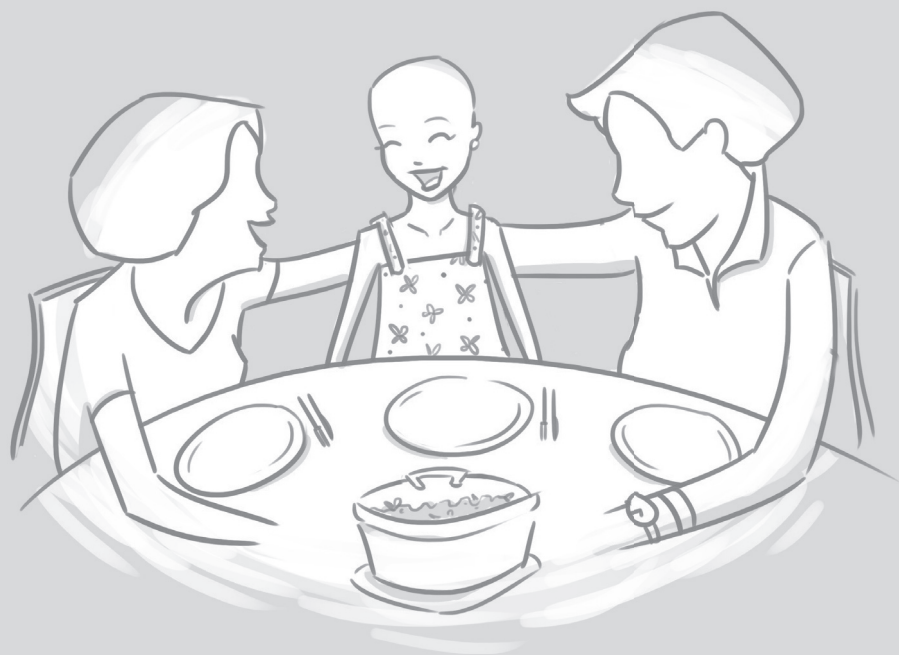
- Imber-Black, E., & Roberts, J. (1993). *Rituals for our times: Celebrating, healing, and changing our lives and our relationships*. New York, NY: Harper Perennial.
- Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 57*, 25-30. doi:10.1037/0022-006X.57.1.25
- Kazak, A. E., Hocking, M. C., Ittenbach, R. F., Meadows, A. T., Hobbie, W., DeRosa, B. W., . . . Reilly, A. (2012). A revision of the Intensity of Treatment Rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatric Blood & Cancer, 59*, 96-99. doi:10.1002/pbc.23320
- Long, K. A., & Marsland, A. L. (2011). Family adjustment to childhood cancer: A systematic review. *Clinical Child and Family Psychology Review, 14*, 57-88. doi:10.1007/s10567-010-0082-z
- Markson, S., & Fiese, B. H. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of Pediatric Psychology, 25*, 471-480. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471
- Mead, M. (1973). Ritual and social crisis. In J. D. Shaughnessy (Ed.), *The roots of ritual* (pp. 87-101). Grand Rapids, MI: William Eerdmans.
- Moody, K., Finlay, J., Mancuso, C., & Charlson, M. (2006). Feasibility and safety of a pilot randomized trial of infection rate: Neutropenic diet versus standard food safety guidelines. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology, 28*, 126-133. doi:10.1097/01.mph.0000210412.33630.fb
- Mor, M., Gilad, G., Kornreich, L., Fisher, S., Yaniv, I., & Levy, I. (2011). Invasive fungal infections in pediatric oncology. *Pediatric Blood & Cancer, 56*, 1092-1097. doi:10.1002/pbc.23005
- Pai, A. L. H., Greenley, R. N., Lewandowski, A., Drotar, D., Youngstrom, E., & Peterson, C. C. (2007). A meta-analytic review of the influence of pediatric cancer on parent and family functioning. *Journal of Family Psychology, 21*, 407-415. doi:10.1037/0893-3200.21.3.407
- Patton, M. Q. (2002). *Qualitative research & evaluation methods*. London: Sage Publication.
- QSR International. (2012). NVivo (version 10) [Computer software]. Retrieved from <http://www.qsrinternational.com/>
- Roberts, J. (2003a). Rituals and serious illness: Marking the path. In E. Imber-Black, J. Roberts & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2 ed., pp. 237-252). New York, NY: W. W. Norton & Company.
- Roberts, J. (2003b). Setting the frame: Definition, functions, and typology of rituals. In E. Imber-Black, J. Roberts & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2 ed., pp. 3-48). New York, NY: W. W. Norton & Company.

- Robinson, K. E., Gerhardt, C. A., Vannatta, K., & Noll, R. B. (2007). Parent and family factors associated with child adjustment to pediatric cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, 32, 400-410. doi:10.1093/jpepsy/jsl038
- Rodger, S., & Umaibalan, V. (2011). The routines and rituals of families of typically developing children compared with families of children with autism spectrum disorder: An exploratory study. *The British Journal of Occupational Therapy*, 74, 20-26. doi:10.4276/030802211x12947686093567
- Rolland, J. S. (2012). Mastering family challenges in serious illness and disability. In F. Walsh (Ed.), *Normal family processes* (4th ed., pp. 452-482). New York, NY: Guilford Press.
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., Alderfer, M. A., & Kazak, A. E. (in press). Family rituals, financial burden and mothers' adjustment in pediatric cancer. *Journal of Family Psychology*.
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2015). Family rituals and quality of life in children with cancer and their parents: The role of family cohesion and hope. *Journal of Pediatric Psychology*, 40, 664-671. doi:10.1093/jpepsy/jsv013
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Kazak, A. E. (2016). Parents' romantic attachment predicts family ritual meaning and family cohesion among parents and their children with cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, Advance online publication. doi:10.1093/jpepsy/jsw043
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of life and adjustment in youths with asthma: The contributions of family rituals and the family environment. *Family Process*, 51, 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- SIOPE, & JKF. (2009). *European standards of care for children with cancer*. Varsóvia.
- Spagnola, M., & Fiese, B. H. (2007). Family routines and rituals: A context for development in the lives of young children. *Infants & Young Children*, 20, 284-299. doi:10.1097/01.IYC.0000290352.32170.5a
- Steinglass, P. (1998). Multiple family discussion groups for patients with chronic medical illness. *Families, Systems, & Health*, 16, 55-70. doi:10.1037/h0089842
- Strauss, A., & Corbin, J. M. (1998). *Basics of qualitative research: Techniques and procedures for developing Grounded Theory* (2 ed.). Thousand Oaks, CA: SAGE Publications.
- van der Hart, O. (1983). *Rituals in psychotherapy: Transition and continuity*. New York, NY: Ardent Media.
- Vannatta, K., Salley, C. G., & Gerhardt, C. A. (2009). Pediatric oncology: Progress and future challenges. In M. C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (4th ed., pp. 319-333). New York, NY: The Guilford Press.

Wolin, S. J., & Bennett, L. A. (1984). Family rituals. *Family Process*, 23, 401-420.
doi:10.1111/j.1545-5300.1984.00401.x

CAPÍTULO IV

DISCUSSÃO GERAL



Capítulo IV | Discussão Geral

Em Portugal, nos últimos anos tem-se verificado uma maior preocupação em torno do cancro pediátrico, como se pode verificar pela (parcial) implementação (Pritchard-Jones et al., 2011) das recomendações da SIOPE contidas nos Padrões Europeus de Cuidados às Crianças com Cancro apresentados em 2009 (Kowalczyk et al., 2014; Kowalczyk et al., 2016), pela aprovação da lei que cria o regime especial de proteção de crianças e jovens com doença oncológica (Assembleia da República, 2009), entre outras iniciativas. Contudo, esta preocupação médico, político e social não tem sido acompanhado por um interesse correspondente no que se refere ao conhecimento da experiência psicológica não só das crianças diagnosticadas com cancro, como dos seus pais. Nesse sentido, o presente trabalho pretende ser um contributo para um conhecimento mais aprofundado da adaptação de crianças com cancro e dos seus pais, mais especificamente nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Apesar de o estudo ter sido realizado numa amostra de crianças e pais portugueses, procurámos dar respostas a lacunas da literatura internacional.

O principal objetivo da presente investigação, baseada no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), foi a identificação de fatores que concorrem em diferentes níveis sistémicos e que explicam a heterogeneidade de resultados da adaptação individual e familiar no contexto do cancro pediátrico. Foi dado especial destaque aos fatores que se inscrevem no nível microssistémico (p. ex. família e os subsistemas da família; doença/tratamento) mas, sobretudo, à interação entre dois ou mais microssistemas que ocorrem no nível mesossistémico, sem descurar o nível cronossistémico (p. ex. fases do cancro pediátrico; idade da criança). Estas lentes teóricas permitiram-nos enquadrar a compreensão do impacto da doença e do tratamento na adaptação individual e familiar, e, em simultâneo, enquadrar o papel que o sistema familiar tem na adaptação (Radcliffe et al., 2006). Com esse propósito, estabeleceram-se dois grandes objetivos, sendo um deles orientado para a compreensão da adaptação individual nas fases de tratamento e de pós-tratamento e outro para a compreensão da adaptação familiar na fase de tratamento:

- I) Avaliar se os fatores clínicos (i.e., intensidade do tratamento), individuais (i.e., esperança) e familiares (i.e., rituais familiares, coesão familiar e sobrecarga financeira) são determinantes chave para a adaptação individual das crianças (i.e., QdVrS genérica, QdVrS específica) e dos seus pais (i.e., QdV, sintomatologia psicopatológica);

- II) Analisar se os fatores familiares (i.e., vinculação amorosa) influenciam o funcionamento familiar (i.e., rituais familiares e coesão familiar). Compreender as percepções subjetivas e os significados associados à vivência dos rituais familiares a partir da perspectiva das mães.

De seguida, faremos uma breve síntese e discussão integrada dos principais resultados encontrados tendo em conta as lacunas a que nos propúnhamos responder. Posteriormente, refletiremos acerca das limitações e pontos fortes do presente estudo, tentando, sempre que possível, apontar direções para investigações futuras. Por fim, daremos destaque às implicações para a prática clínica.

1. Síntese e discussão integrada dos principais resultados

1.1. Adaptação individual

1.1.1. Estudos psicométricos de instrumentos relevantes para o contexto português

Uma das necessidades inerentes ao crescimento da investigação sobre a adaptação no cancro pediátrico em Portugal é a disponibilização de instrumentos de avaliação válidos, fiáveis e adaptados ao contexto nacional. Desta forma, o nosso projeto desenvolveu nos seus primeiros passos a validação para o contexto português de duas medidas específicas do cancro pediátrico - o ITR 3.0 (Kazak et al., 2012) e o PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* (Varni et al., 2002), para, respetivamente avaliar a intensidade do tratamento e a QdVrS (específica). Começamos por descrever, sinteticamente, a pertinência da inclusão destas duas escalas, para, de seguida, apresentar e discutir os resultados dos estudos psicométricos.

Uma vez que as melhorias registadas nas taxas de sobrevivência no cancro pediátrico dos últimos 50 anos se devem, entre outros aspetos (cf. Lissauer & Clayden, 2012; Ward et al., 2014), ao uso de protocolos intensivos de quimioterapia, combinada com a cirurgia e/ou radioterapia (Vassal et al., 2016), a avaliação da intensidade do tratamento pode ter um contributo interessante quer para a investigação quer para a clínica, como veremos mais adiante.

Além disso, se inicialmente o foco estava na sobrevivência, cada vez mais tem surgido uma preocupação crescente com a qualidade da sobrevivência. Por outras palavras, com o impacto que a doença e os tratamentos têm na vida das crianças, a QdVrS (específica) é, pela sua sensibilidade, um conceito chave (cf. Ponto 5.1.2.1 da secção II, do capítulo I). A este respeito importa salientar que um dos objetivos, para os próximos dez anos, inscritos no plano estratégico da SIOPE (Vassal et al., 2016) é a melhoria da QdV dos sobreviventes de cancro pediátrico; uma das estratégias propostas é a diminuição da intensidade do tratamento, de forma a diminuir o risco de sequelas a longo prazo (e de efeitos secundários a

curto prazo) em crianças cuja probabilidade de cura é maior, por comparação a crianças com pior prognóstico (-50 % ou menos hipóteses de sobrevivência após cinco anos).

1.1.1.1. O ITR 3.0

Os protocolos de tratamento atuais variam bastante na sua intensidade (Kazak et al., 2012). O ITR 3.0 é uma escala de classificação que avalia a intensidade do tratamento em quatro níveis de intensidade. Esta escala é composta por dois componentes: quatro níveis de intensidade e 43 itens de conteúdo, que combinam o tipo/subtipo de diagnóstico, a história de recidiva, o estágio/nível de risco e a(s) modalidade(s) de tratamento (Kazak et al., 2012). A riqueza desta classificação reside no facto de ser multidimensional, objetiva (reportada pelo médico oncologista pediátrico) e transversal a todos os tipos de diagnóstico oncológico em idades pediátricas. Recorde-se que o cancro pediátrico é uma doença rara, o que pressupõe que estudos psicossociais incluam amostras muito heterogéneas do ponto de vista do tipo de diagnóstico e protocolo terapêutico (Eiser, 2004). Além disso, também possibilita a diferenciação da intensidade do tratamento dentro do mesmo tipo de diagnóstico. Por exemplo, o protocolo terapêutico para as leucemias pode variar ao longo dos quatro níveis de intensidade, dependendo do subtipo, da história de recidiva, do nível de risco e das modalidades de tratamento envolvidas.

Respondendo às lacunas identificadas ao nível da metodologia, os resultados do **Estudo I** evidenciaram qualidades psicométricas de fiabilidade, aplicabilidade e utilidade do ITR 3.0 no contexto Português nas fases de tratamento e de pós-tratamento.

- **Aplicabilidade.** Apesar do desenvolvimento do ITR 3.0 ter sido feito com base nos protocolos de tratamento dos EUA (i.e., do *Children's Oncology Group*), os médicos oncologistas pediátricos indicaram a aplicabilidade desta classificação aos protocolos terapêuticos disponibilizados em Portugal, recomendados pela SIOPE. Aliás, a SIOPE tem parceiros noutros continentes; a título de exemplo está, atualmente, a decorrer um ensaio clínico que envolve a *Children's Oncology Group* e a *European Inter-group for Childhood non Hodgkin lymphoma* (Vassal et al., 2016).
- **Qualidades psicométricas de fiabilidade.** Os valores de coeficiente de Kappa sustentam a fiabilidade interavaliadores (i.e., a concordância quase perfeita entre dois médicos oncologistas pediátricos) na avaliação da intensidade do tratamento nas fases de tratamento e de pós-tratamento, à semelhança do observado nas versões originais (Kazak et al., 2012; Werba et al., 2007) e em estudos anteriores (Alderfer et al., 2009).

- **Utilidade.** A intensidade do tratamento é uma característica definidora do acontecimento indutor de *stress*, motivo pelo qual este instrumento foi utilizado em todos os nossos estudos. O facto do ITR 3.0 caracterizar a amostra em termos de intensidade do tratamento recebido e de permitir discriminar diferentes níveis de QdVrS (genérica) de indivíduos submetidos a tratamentos com uma intensidade de nível 2 (*moderadamente intensivos*) e de indivíduos submetidos a tratamentos com uma intensidade de nível 3 e 4 (*muito intensivos* e de *máxima intensidade*, respetivamente), poderá ser de grande utilidade para a investigação e para a prática clínica, uma vez que possibilita a sinalização de crianças que possam apresentar risco para pior QdVrs (genérica) na fase de tratamento.

1.1.1.2. O PedsQL™ 3.0 Cancer Module

Respondendo às lacunas identificadas ao nível da metodologia, os resultados do **Estudo II** atestaram qualidades psicométricas de fiabilidade e de validade, bem como compreensibilidade do PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* no contexto Português, mais especificamente em crianças e adolescentes diagnosticadas com cancro com idades compreendidas entre os 8 e os 18 anos, nas fases de tratamento e de pós-tratamento.

- **Compreensibilidade.** As crianças e os adolescentes não reportaram dificuldades na compreensão dos itens e na utilização da escala de resposta do PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*, tendo preenchido autonomamente todos os itens do PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*.
- **Qualidades psicométricas de validade fatorial.** A análise fatorial confirmatória corroborou a estrutura fatorial constituída por um fator de 2ª ordem mais geral - a QdVrS (específica), que se manifestou nas oito dimensões de QdVrS avaliadas pelo PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*, que, por sua vez, se manifestou nos 27 itens do instrumento de medida. Este foi o primeiro estudo a testar e a corroborar a estrutura fatorial proposta pelos autores da versão original (Varni et al., 2002), o que contribuiu para uma maior utilidade do instrumento, tanto para a área clínica como para a investigação, ao permitir o estudo de cada dimensão da QdVrS (específica) e dos valores globais da escala da QdVrS (específica). Uma vez estabelecida a estrutura fatorial, testou-se a validade convergente e a fiabilidade.
- **Qualidades psicométricas de validade convergente.** As correlações significativas das subescalas e do valor global da escala da QdVrS específica com a ansiedade (negativas) e com a QdVrS genérica (positivas) atestam a validade convergente, à

semelhança do observado na versão original (Varni et al., 2002) e em outras versões (Lau et al., 2010; Tsuji et al., 2011).

- **Qualidades psicométricas de fiabilidade.** Os índices de consistência interna variam entre valores minimamente aceitáveis a valores muito bons, corroborando os dados encontrados na versão chinesa (Lau et al., 2010). Relativamente ao teste-reteste (coeficientes de correlação intraclasse), à semelhança da versão brasileira (Scarpelli et al., 2008), estes traduzem valores de boa ou excelente estabilidade temporal, quer nas subescalas do PedsQL™ 3.0 *Cancer Module*, quer nos valores globais da escala.

1.1.2. Determinantes da adaptação individual

O interesse em compreender a variabilidade na adaptação individual nas fases de tratamento e de pós-tratamento, levou à identificação dos fatores que influenciaram a adaptação das crianças e dos seus pais em três estudos. O **Estudo I** focou-se na influência dos fatores clínicos na fase de tratamento. Os **Estudos II** e o **III** centraram-se, sobretudo, no papel dos fatores individuais e familiares nas fases de tratamento e de pós-tratamento.

Os resultados do **Estudo I** confirmaram o impacto do protocolo terapêutico, mais especificamente da intensidade do tratamento na QdVrS (genérica). Da comparação da adaptação de crianças em função da intensidade do tratamento importa salientar que:

- Foram encontradas diferenças na QdVrS (genérica), tendo-se verificado que as crianças do grupo de tratamento de intensidade nível 3 e 4 (respetivamente, *muito intensivos* e de *máxima intensidade*) apresentavam pior QdVrS (genérica) do que as crianças do grupo de tratamento de intensidade nível 2 (*moderadamente intensivos*). Porém, não foram encontradas diferenças entre as crianças do grupo de tratamento de intensidade nível 3 (*muito intensivos*) e as crianças do grupo de tratamento de intensidade nível 4 (*máxima intensidade*).

Os resultados do **Estudo III** confirmaram a importância do significado dos rituais familiares, da coesão familiar e da esperança para a QdVrS (específica) das crianças e para a QdV dos pais nas fases de tratamento e de pós-tratamento. De entre os resultados encontrados, considerámos importante destacar os seguintes:

- O significado dos rituais familiares estava associado positivamente à QdV dos pais, mas não à QdVrS (específica) das crianças. Porém, apesar da inexistência de uma relação direta entre significado dos rituais e QdVrS (específica) das crianças, verificou-se, a partir do teste de um modelo de mediação, que existia uma relação

indireta entre estas variáveis. Em suma, o significado dos rituais familiares estava positivamente associado à QdV dos pais e à QdVrS (específica) das crianças através da coesão familiar e da esperança.

- Em relação à força dos mecanismos encontrados (coesão familiar vs. esperança), nas crianças verificámos que o significado dos rituais familiares influenciou a QdVrS (específica) de igual forma, tanto via coesão familiar como via esperança. No que concerne aos pais, os resultados evidenciaram que o significado dos rituais familiares influenciou a QdV destes, sobretudo, via coesão familiar;
- Ao nível das relações diádicas, verificou-se que o significado dos rituais familiares dos pais estava associado à QdVrS (específica) das crianças via coesão familiar das crianças;
- Este modelo foi igualmente válido: i) quer para crianças (entre os 8-12 anos) e seus pais, quer para adolescentes (entre os 13-20 anos) e seus pais; ii) tanto na fase de tratamento, como na fase de pós-tratamento; iii) em famílias com nível socioeconómico mais baixo e de nível socioeconómico mais elevado (i.e., médio e elevado).

O significado dos rituais familiares revelou-se, ao longo dos nossos estudos, fundamental para compreender a adaptação individual. Também no **Estudo IV**, onde procurámos compreender a relação entre a sobrecarga financeira e a sintomatologia psicopatológica das mães nas fases de tratamento e de pós-tratamento, revelou-se o seu papel enquanto fator protetor em condições de níveis mais elevados de significado dos rituais familiares.

- Dados preliminares demonstraram que não foram verificadas diferenças na sintomatologia ansiosa e depressiva em função das fases do cancro pediátrico (i.e., fase de tratamento vs. fase de pós-tratamento), da situação profissional da mãe (i.e., ativa vs. não-ativa) e do nível socioeconómico da família (baixo vs. médio-elevado).
- A sobrecarga financeira estava associada a níveis mais elevados de sintomatologia ansiosa e depressiva. Porém, quando as mães atribuíram maior significado aos rituais familiares, a sobrecarga financeira deixou de estar associada à sintomatologia ansiosa.

- Para a sintomatologia depressiva, os resultados foram um pouco distintos. O significado dos rituais familiares não amorteceu os efeitos da sobrecarga financeira na sintomatologia depressiva.

Respondendo às lacunas identificadas ao nível dos temas e conteúdos para a compreensão da adaptação individual, os resultados do **Estudo I** salientam a influência do protocolo terapêutico na adaptação individual, gerando comprometimento da QdVrS (genérica), principalmente para as crianças submetidas a níveis mais elevados de intensidade do tratamentos (i.e., *tratamentos muito intensivos* e de *máxima intensidade*), o que pode dever-se ao facto dos tratamentos mais intensivos estarem associados à elevada frequência e intensidade dos efeitos secundários (Schwartz et al., 2010), como sejam: maior ocorrência de infeções (Mor et al., 2011); maior necessidade de transfusões (A. L. Thompson, Gerhardt, Miller, Vannatta, & Noll, 2009); outros cuidados de suporte, tal como é sugerido na literatura. Assim, parece-nos que, no seu todo, estes resultados vêm reforçar a ideia de que o protocolo terapêutico é especialmente desafiante para as crianças submetidas a tratamentos, cuja intensidade é mais elevada (Landolt et al., 2006; Magal-Vardi et al., 2004), sem que isso implique diferenças entre os dois níveis mais elevados. De acordo com Kazak et al. (2010), quando estamos a considerar níveis mais elevados de intensidade, poderá haver uma menor variabilidade na forma como as crianças percecionam o seu impacto na QdVrS. Aliás, estudos recentes (p. ex. Doshi et al., 2014) têm optado por agrupar os dois níveis mais baixos (*menos intensivos*²³ e *moderadamente intensivos*) e os dois níveis mais elevados (*muito intensivos* e de *máxima intensidade*).

Todavia, de acordo com o modelo socioecológico da adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009) a doença/tratamento é apenas um dos fatores que pode influenciar a adaptação da criança. Assim, além de aspetos do cancro ou do seu tratamento (i.e., intensidade do tratamento), a adaptação das crianças e dos seus pais, nas fases de tratamento e de pós-tratamento, é suscetível de ser influenciada por outros fatores. Corroborando essa perspetiva, os resultados do **Estudo III** e do **Estudo IV** apontam para o contributo de fatores familiares e/ou individuais na adaptação.

Os resultados obtidos no **Estudo III** atestam, assim, a importância dos fatores familiares (significado dos rituais familiares e coesão familiar) e dos fatores individuais (esperança) para a adaptação das crianças com cancro e dos seus pais, permitindo, ainda, confirmar a influência que os pais exercem na adaptação das crianças. Adicionalmente, os resultados deste estudo respondem às lacunas metodológicas ao possibilitarem a compreensão dos efeitos complexos que explicam a associação entre variáveis; observou-se, também, que a

²³ Nota: Na amostra que integrou O **Estudo I** não se verificou nenhum caso de nível 1 (tratamentos menos intensivos), ao contrário do que veremos noutros estudos, o facto de este estudo ter sido realizado antes de “fechar” a recolha de amostra, justifica a sua ausência. Além disso, é de referir que não incluímos para esta análise crianças na fase de pós-tratamento.

coesão familiar e a esperança eram dois mecanismos através dos quais o significado dos rituais familiares influenciou a QdV/QdVrS (específica).

Em relação à coesão familiar, os nossos resultados sugerem que este indicador do funcionamento familiar parece ser um dos mecanismos através dos quais o significado dos rituais familiares contribui para uma melhor adaptação, de forma congruente com a literatura em contextos normativos e de outras condições crônicas de saúde como a asma (Crespo, Kielpikowski, Pryor, & Jose, 2011; Santos et al., 2012). É possível que os elementos de uma família que se envolva mais frequentemente em rituais familiares (como a hora de jantar, fim de semana e celebrações anuais) e que atribuam maior significado a estes eventos possam perceber a sua família como mais coesa e interdependente (Crespo et al., 2011). Notámos que este resultado foi sistematicamente encontrado noutros recortes da amostra (cf. **Estudo V**) e com base em metodologias distintas (cf. **Estudo VI**). Quando a família é mais unida pode existir um maior apoio emocional e uma maior interajuda (p. ex. assegurar que a criança faz a medicação na dosagem e no tempo previstos; monitorizar o estado de saúde da criança, nomeadamente os primeiros sinais de recidiva) entre os elementos da família, o que se poderá traduzir numa melhor QdV/QdVrS (Klassen et al., 2007).

Os resultados da nossa investigação mostraram que a esperança parece ser outro mecanismo através do qual o significado dos rituais familiares contribui para uma melhor adaptação. É possível que os rituais familiares sejam um contexto privilegiado para promover a esperança (Buchbinder, Longhofer, & McCue, 2009) uma vez que estes fazem a ponte entre passado, presente e futuro. Tal como refere Fiese “Just as anthropologists have described the power of rituals to connect past, present, and future, therapeutic interventions of this sort afford the opportunity to recognize past legacies, interpret their significance in the present, and look to the future for hope and change” (2006, p. 112). A esperança, que inclui a crença de que é possível alcançar os objetivos, permite que a família perspetive os passos a seguir e mobilize os recursos necessários para os alcançar (Snyder et al., 1997), o que se poderá traduzir numa melhoria da QdV/QdVrS (Germann et al., 2015). A teoria da vinculação contribui também para explicar este mecanismo de influência, já que postula que “interactions with available and supportive attachment figures sustain a background sense of hope and optimism, making it easy for a person to believe and feel that most of life’s problems are solvable and most distress is manageable” (Mikulincer & Shaver, 2007, p. 38). Sendo a família, simultaneamente o contexto em que se inserem habitualmente as figuras de vinculação (e.g. pais; par amoroso) e enquanto sistema, ela própria, um contexto de vinculação (Byng-Hall, 1995), é possível considerá-la como uma matriz relacional propícia à emergência e desenvolvimento de esperança.

Este estudo, ao congrega dois mediadores de níveis distintos (familiar e individual) contribui também para a compreensão, que se pretende cada vez mais complexa, da matriz sistémica de influências na adaptação. Para a compreensão da adaptação, devem-se

considerar, simultaneamente, a influência de fatores de níveis sistémicos distintos, como o individual, conjugal, parental e familiar, bem como a interdependência inerente aos mesmos.

Quando analisadas as forças dos mecanismos de influência (coesão familiar vs. esperança) para pais e filhos, apenas foram encontradas diferenças entre os mecanismos para os pais. Ao contrário das crianças, os pais parecem beneficiar mais dos efeitos do significado dos rituais familiares na QdV, pelo efeito que estes exercem na coesão familiar, comparativamente ao efeito que também exercem na esperança. Estes resultados podem ser interpretados à luz de estudos que sugerem que uma família mais coesa pode, através da partilha de tarefas (p. ex. Klassen et al., 2007), aligeirar a sobrecarga associada à prestação dos cuidados, o que justificaria a razão pela qual este caminho seria especialmente premente para os pais. Adicionalmente, estes dados podem ainda ser interpretados à luz dos resultados do **Estudo VI** que será apresentado, de forma pormenorizada, adiante; ou seja, o facto da promoção da coesão familiar ter sido uma das funções dos rituais familiares que, emergiu mais frequentemente das entrevistas poderá justificar estes resultados.

Adicionalmente, quando os pais atribuíram maior significado aos rituais familiares, as crianças reportaram níveis mais elevados de coesão familiar e, conseqüentemente, melhor QdVrS. Além de reforçar o mecanismo anteriormente explicado, é interessante perceber que à semelhança do que foi encontrado noutros estudos, quando os pais atribuíam maior significado aos rituais familiares, as crianças percebiam a família como mais coesa (Crespo et al., 2011). O facto de os pais, em especial as mães, desempenharem o papel de “kinkeepers” (i.e., pessoa responsável por manter os membros da família em contacto, planear os rituais e organizar reuniões de família; Fiese, 2006; Leach & Braithwaite, 1996) pode justificar a influência que os pais exercem na perceção das crianças acerca da coesão familiar, mas não o contrário. De facto, no **Estudo VI**, que será analisado detalhadamente mais à frente, os principais responsáveis e impulsionadores para a concretização dos rituais familiares foram as mães, um dado em consonância com a literatura sobre rituais familiares e papéis de género.

Apesar de as famílias serem confrontadas com desafios diferentes dependendo da fase do cancro pediátrico, da idade do paciente (Kazak et al., 2009) e do nível socioeconómico da família, os dados sugerem que os mecanismos através dos quais o significado dos rituais familiares está associado a melhor QdV/QdVrS (específica) são os mesmos. Por outras palavras, os rituais familiares estavam associados à coesão familiar e à esperança, que, por sua vez, estava associada à QdV/QdVrS (específica), independentemente da fase do cancro pediátrico (fase de tratamento vs. fase de pós-tratamento), da idade do paciente (criança vs. adolescente) e do nível socioeconómico da família (baixo vs. médio-elevado). Estes resultados são especialmente pertinentes por sugerirem que as dificuldades financeiras não parecem comprometer a influência dos rituais familiares na adaptação das crianças e dos seus pais. Por outras palavras, os rituais familiares podem ser importantes mesmo perante dificuldades financeiras. Estes dados vão ao encontro dos resultados de um estudo recente, no qual se

verificou que a prática de rituais familiares amortizou os efeitos negativos do *stress* parental no ajustamento emocional dos filhos, num contexto adverso pautado por dificuldades económicas e pouca disponibilidade para estar em família (Yoon, Newkirk, & Perry-Jenkins, 2015). Os rituais familiares parecem ser fontes de força e de resiliência familiar em épocas de *stress* (Fiese et al., 2002), na medida em que permitem criar um espaço simbólico partilhado pelos elementos da família. Deste modo, além da estrutura, o poder dos rituais familiares parece estar na flexibilidade de adaptação ao longo do tempo e na capacidade de preservar os símbolos inerentes a estes eventos (Fiese, 2006; Roberts, 2003a). De acordo com Imber-Black and Roberts (1993, p. 74)

In order for rituals to stay alive and meaningful to you and your intimates, they need to be flexible as individuals and relationships change and grow (...) such flexible rituals can capture and express the change, while still offering families a sense of continuity and connectedness through time.

Estes resultados podem ser interpretados em conjunto com os resultados do **Estudo IV**. Neste estudo observou-se que níveis mais elevados de sobrecarga financeira estavam associados positivamente à sintomatologia ansiosa e depressiva das mães; porém, quando estas atribuíam maior significado aos rituais familiares, a relação entre a sobrecarga financeira e a sintomatologia ansiosa deixava de ser significativa. Para além de responder às lacunas identificadas ao nível dos temas e conteúdos para a compreensão da adaptação individual, estes resultados mostram a complexidade das relações entre fatores de influência que explicam a adaptação individual.

A literatura tem indicado que o cancro pediátrico tem consequências financeiras para a família, decorrentes do acréscimo de despesas médicas e não médicas não comparticipadas pelo estado (p. ex. despesas relacionadas com a compra de máscaras/medicamentos ou despesas relacionadas com deslocações ao Hospital em viatura própria) e da diminuição do rendimento familiar devido à interrupção total ou parcial do número de horas de trabalho, com impacto na adaptação individual dos pais nas fases de tratamento e de pós-tratamento (P. D. Creswell et al., 2014; Klassen, Raina, et al., 2011; Wiener et al., 2015). Relativamente ao contexto português, o tratamento do cancro é financiado pelo Estado e a atual lei Portuguesa contempla um conjunto de medidas de apoio no trabalho e de apoio social que possibilitam que o trabalhador (pai ou a mãe) possa ausentar-se do trabalho e usufruir de um subsídio para assistência ao filho com cancro, subsídio esse que corresponde a 65% da remuneração de referência (cf. Ponto 3, da secção I do capítulo I). Embora constitua uma ajuda, as famílias ficam privadas de 35% da remuneração e algumas delas podem não ter acesso a este subsídio (p. ex. nas situações em que um dos pais está desempregado ou após os quatro anos de licença). Paralelamente, estudos indicam que as dificuldades económicas não são só sentidas na fase de tratamento, prolongando-se à fase de pós-tratamento (p. ex. Miedema, Easley, Fortin, Hamilton, & Mathews, 2008), o que pode intensificar as preocupações das mães, e aumentar os níveis de sintomatologia psicopatológica (P. D.

Creswell et al., 2014). Contudo, este estudo indicou que o significado dos rituais familiares amortecia a influência da sobrecarga financeira na sintomatologia ansiosa. Especificamente, níveis mais elevados de significado atribuído aos rituais familiares funcionam como um fator protetor, proporcionando estabilidade em tempos de crise. Como refere Imber-Black and Roberts (1993) “rituals can also provide an anchor, a steadying point for you and those close to you when are experience intense change” (p. 301). Nesse sentido, os rituais familiares podem exercer um papel fulcral na estabilização da família, sendo mais fácil lidar com os desafios inesperados da doença/tratamento (Markson & Fiese, 2000). O facto dos rituais familiares serem um espaço privilegiado para receber apoio emocional (Crespo et al., 2013) também poderá justificar estes resultados. Uma explicação alternativa para o papel moderador dos rituais familiares pode estar relacionada com um esforço de reatribuição de significado à situação e de readequação das suas expectativas, de forma a valorizar os aspetos mais positivos (Alderfer & Kazak, 2006). Embora deixar de trabalhar ou trabalhar menos horas possa implicar dificuldades económicas, as mães podem olhar para a situação como uma oportunidade para estar com a criança/família (Buchbinder et al., 2009) e podem reajustar aquilo que contribui para a satisfação com a vida. Assim, o facto de as mães estarem mais disponíveis para planear e organizar eventos familiares, poderá funcionar como um fator protetor, favorecendo, nas mães, uma diminuição dos níveis de sintomatologia ansiosa. De modo semelhante, Markson e Fiese (2000) verificaram que, num contexto de elevado *stress* relacionado com a saúde, quando as mães atribuíram maior significado aos rituais familiares, as crianças reportaram níveis mais baixos de sintomatologia ansiosa. Também Yoon et al. (2015) sugeriram, ainda, que em épocas em que há menos tempo para estar em família, os rituais familiares podem ser os únicos momentos em que a família consegue efetivamente fazê-lo.

Por outro lado, é possível que as mães com níveis mais elevados de sintomatologia depressiva apresentem um pensamento mais centrado nos aspetos negativos (Beck, 2008), nomeadamente na sobrecarga financeira, o que poderá justificar a ausência de uma diminuição do efeito da sobrecarga financeira na sintomatologia depressiva. Adicionalmente, alguns estudos têm indicado que quando as mães apresentam sintomatologia depressiva, o ambiente familiar dos rituais familiares (p. ex. Dickstein et al., 1998) fica comprometido, aspeto que também conflui para a explicação deste resultado.

1.2. Funcionamento familiar

1.2.1. Determinantes do funcionamento familiar

A necessidade de compreender a variabilidade da adaptação familiar motivou o interesse pelos fatores que influenciam a coesão familiar e os rituais familiares na fase de tratamento. Realizaram-se, então, dois estudos: o **Estudo V** centrou-se no papel da vinculação amorosa, enquanto o **Estudo VI** procurou compreender as perceções subjetivas e

os significados associados à vivência dos rituais familiares numa amostra de mães de crianças com cancro na fase de tratamento.

De entre os resultados encontrados no **Estudo V**, consideramos relevante destacar os seguintes:

- Não se verificaram mudanças significativas ao longo de dois momentos da fase de tratamento (no início do tratamento e seis meses após o primeiro momento) ao nível do significado dos rituais familiares e da coesão familiar;
- A dimensão evitamento da vinculação amorosa (vs. ansiedade) inicial mostrou ser um preditor significativo de níveis inferiores de significado atribuído aos rituais familiares e de coesão familiar, tanto para os pais como para as crianças (após controlar o tempo desde o diagnóstico);
- Procurando compreender os mecanismos subjacentes, verificámos que níveis mais elevados de evitamento na vinculação amorosa eram um preditor significativo de níveis inferiores de coesão familiar direta e indiretamente, através do impacto que esta teve na diminuição do significado dos rituais familiares, tanto para os pais como para as crianças (após controlar o tempo desde o diagnóstico e a dimensão ansiedade).

De entre os resultados encontrados no **Estudo VI**, realçamos os seguintes:

- Foram encontrados dois padrões distintos de mudança na vivência dos rituais familiares: um caracterizado pela perda de rituais familiares que incluía o não comparecimento nos rituais familiares e a rutura dos rituais familiares, e outro caracterizado pela transformação dos rituais familiares que incluía a readaptação de rituais familiares, a criação de novos rituais familiares e o restabelecimento de rituais familiares antigos;
- Os dados permitiram a identificação de sete funções gerais dos rituais familiares (celebrar, coesão familiar, comunicação familiar, quebrar a rotina, sensação de previsibilidade, sensação de segurança, ritmo de vida); e cinco funções específicas dos rituais familiares para o contexto de saúde (ligação à vida, esperança, marcar o curso do tratamento, sensação de normalidade, adesão ao tratamento²⁴).

²⁴ Na versão inglesa, traduzimos as categorias por, respectivamente *celebrating, family cohesion, family communication, respite, sense of predictability, sense of security, rhythm of life, grounding in life, hope, marking the course of treatment, sense of normalcy, treatment adherence*.

Partindo do pressuposto que a família é mais do que a soma das partes (von Bertalanffy, 1973), e de que o cancro não afeta apenas os membros da família mas também a forma como a família funciona (Alderfer & Kazak, 2006), e com vista a colmatar as lacunas identificadas ao nível dos temas e conteúdos para a compreensão da adaptação familiar, conduzimos o **Estudo V e VI**.

Tal como verificado em estudo anteriores (p. ex. Varni et al., 1996), os resultados dos **Estudo VI** indicam a inexistência de diferenças no funcionamento familiar, sugerindo que os níveis de coesão familiar e o significado atribuído aos rituais familiares permanece relativamente estável. Adicionalmente os resultados sugerem que a vinculação amorosa influencia o funcionamento familiar, corroborando a perspetiva sistémica da vinculação amorosa tal como inscrita no modelo sistémico da vinculação segura nas relações de casal (Mikulincer et al., 2002).

Acerca desta temática, os resultados sugerem que indivíduos com níveis mais elevados de evitamento no âmbito da vinculação amorosa reportavam pior funcionamento familiar seis meses depois (i.e., níveis mais baixos de coesão familiar e níveis mais baixos de significado atribuído aos rituais familiares), tanto na perspetiva dos pais como das crianças, à semelhança do encontrado em estudos realizados com a população geral (Crespo et al., 2008; Pedro et al., 2015).

Conferimos também que o evitamento teve impacto negativo na coesão familiar, direta e indiretamente, através dos rituais familiares. É possível que indivíduos com níveis mais elevados de evitamento não invistam e não atribuam tanto significado aos eventos familiares, uma vez que tendem a manter distanciamento emocional e independência e podem apresentar dificuldades em estabelecer e manter relações (Mikulincer & Shaver, 2007), o que se poderá refletir na sua perceção de coesão familiar (cf. **Estudo III e VI**).

Adicionalmente, quando a vinculação amorosa dos pais se caracteriza por níveis mais elevados de evitamento é possível que isso também se reflita numa maior desvalorização dos rituais familiares e, por consequência, numa menor perceção de união familiar por parte dos filhos. Estes resultados parecem ir ao encontro do sugerido por Rosenthal e Marshall (1988) quando afirmam que os rituais familiares são passados pelos pais à geração seguinte, bem como pelos resultados do **Estudo III**, que ilustram a influência dos pais nas crianças, aspeto congruente com o modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009) e com a perspetiva transacional (Fiese & Sameroff, 1989).

Embora não tenhamos testado este modelo em famílias com filhos saudáveis, de acordo com a teoria da vinculação, os estilos de vinculação estão particularmente pronunciados em situações indutoras de *stress* (Bowlby, 1982), pelo que estes dados podem ser especialmente relevantes para a prática clínica.

Os resultados que envolvem as variáveis de cariz familiar e conjugal, no seu todo ilustram a complexidade inerente ao estudo da família. Este contexto e os elementos que o

compõem podem ser, no âmbito de uma condição de saúde, uma fonte de apoio, segurança e bem-estar. Porém, sob certas condições, estas funções podem não ser cumpridas, o que pode constituir uma fonte de *stress* adicional para pacientes e familiares que experienciam situações adversas de saúde. No caso específico da vinculação amorosa, a incongruência entre o apoio recebido e o “esperado” (pessoal e socialmente) pode constituir-se como fonte de insatisfação e dificuldades ao nível conjugal, repercutindo-se sistemicamente a nível familiar (Mikulincer et al., 2002).

Adicionalmente e com vista a dar resposta à inexistência de estudos focados no impacto do cancro pediátrico na vivência dos rituais familiares e nas suas funções e tendo em conta a importância dos estudos qualitativos para aceder às significações individuais conduzimos o **Estudo VI**.

Os resultados do **Estudo VI** mostraram que o cancro pediátrico afetou os rituais familiares e as suas funções, confirmando a ideia de que esta condição influencia não apenas os indivíduos da família, mas também o funcionamento da família como um todo (Alderfer & Kazak, 2006; Pai et al., 2007). Este impacto foi ilustrado por dois padrões de mudança que, embora distintos, foram utilizados por quase todas as famílias em simultâneo:

De sublinhar que observámos algumas mudanças negativas que denominámos “perda de rituais familiares”, correspondendo ao não comparecimento nos rituais familiares (por exemplo, a família que deixou de estar presente em eventos com a família alargada) e à rutura dos rituais familiares na sequência do tratamento, dos efeitos secundários deste e da indisponibilidade emocional, que comprometeram as funções subjacentes a estes eventos familiares. Verificámos que duas das principais funções que as mães atribuíram aos rituais familiares, e que ficaram comprometidas, eram a coesão familiar e a sensação de previsibilidade. Como salientaram Bossard e Boll (1950) e Markson e Fiese (2000), os rituais familiares organizam a vida familiar e apoiam a sua estabilidade durante períodos de *stress* e transição, sendo expectável que a rutura destes eventos comprometa a sensação de previsibilidade. De forma semelhante, estes resultados parecem ir ao encontro do sugerido por Fiese et al. (2002) e por Imber-Black (2014) quando afirmam que a rutura dos rituais familiares pode constituir-se como uma ameaça à coesão familiar. Adicionalmente, os nossos dados sugerem que o comprometimento das funções subjacentes aos rituais familiares também se verifica na ausência de elementos da família “com quem sempre se podia contar”. Ainda que os dados relativos ao não comparecimento sejam inovadores, é compreensível que a ausência de um elemento afete, principalmente, a coesão e a comunicação.

Por outro lado, todas as mães indicaram um padrão quase distinto de “transformação dos rituais familiares”, que incluía a readaptação de rituais familiares, a criação de novos rituais familiares e o restabelecimento de rituais familiares antigos na sequência do tratamento, dos efeitos secundários deste, da doença, da interrupção total ou parcial do número de horas de trabalho e/ou das novas necessidades. De forma congruente com outros

estudos, a realização de rituais familiares independentemente da mudança subjacente estava associada a diversas funções, sendo de destacar a coesão familiar (Crespo et al., 2011; Santos et al., 2012) e a comunicação familiar (pela elevada frequência com que surgiram nas entrevistas). No âmbito deste último padrão, que destaca a resiliência das famílias, revisitamos a metáfora de Steinglass "finding a place for the illness in family life while at the same time putting the illness in its place" (1998, p. 62). Assim, a execução dos rituais familiares adaptados ao contexto do cancro pediátrico parece ser uma forma das famílias encontrarem o equilíbrio entre momentos livres e não-livres da doença.

O impacto do cancro pediátrico nos rituais familiares e na forma como as famílias lidam com isso parece revestir-se de contornos particulares que seriam, seguramente, impercetíveis a uma metodologia quantitativa. A temática inovadora no contexto do cancro pediátrico e o carácter privado e idiossincrático de alguns rituais familiares (p. ex. ir largar o "não" ao mar) confluem para esta opção metodológica, na medida em que há aspetos da vivência destes eventos que só são capturados através do discurso dos participantes. De acordo com Daly (1992), a investigação qualitativa está mais bem posicionada para a compreensão das práticas das famílias, dos significados, definições e experiências subjetivas. Assim, importa salientar o carácter inovador deste estudo, que sai do espartilho dos questionários em busca dos significados e das vivências.

2. Pontos fortes e limitações do estudo

2.1. Pontos fortes

Consideramos que o nosso trabalho apresenta alguns pontos fortes que fazem dele um contributo válido para o conhecimento atual sobre os processos de adaptação individual e familiar no contexto do cancro pediátrico.

Em primeiro lugar, em termos conceituais, procurámos dar resposta a algumas lacunas nacionais e internacionais sobre a adaptação individual, focando-nos especificamente nas fases de tratamento e de pós-tratamento. O facto da presente investigação incluir participantes em ambas as fases permitiu-nos compreender os fatores que influenciam o processo de adaptação individual nas fases de tratamento e de pós-tratamento, que, como vimos, foram transversais (cf. **Estudo III e IV**). Além disso, o facto de termos circunscrito o limite máximo de cinco anos após o término do tratamento para a fase de pós-tratamento, confere maior consistência à interpretação dos resultados. No que diz respeito ao funcionamento familiar, focámo-nos na fase de tratamento, por essa fase exigir uma reorganização de papéis e responsabilidades familiares que muito podem afetar o funcionamento da família.

Adicionalmente, é de destacar a adoção de uma abordagem compreensiva e multidimensional do conceito de adaptação (D. C. Harper, 1991), que conceptualiza o cancro

pediátrico como um acontecimento não normativo e indutor de *stress*, mas ao qual podem estar associados diferentes resultados, o que contrasta com o modelo orientado para a patologia (Bradford, 1997). Desta forma, ao adotarmos esta perspetiva multidimensional, incluímos não apenas indicadores como a sintomatologia ansiosa e depressiva, mas também indicadores positivos e específicos como a QdV/QdVrS. Para além de indicadores da dimensão emocional da adaptação foram também considerados indicadores positivos do funcionamento familiar. Na verdade, o cancro pediátrico é uma experiência que transcende o nível individual (Alderfer & Kazak, 2006; Kupst & Bingen, 2006). A abordagem ao cancro pediátrico foi também compreensiva, uma vez que considerámos diversos fatores de influência, em particular como os rituais familiares, a coesão familiar ou a esperança. Foi a integração de diversos fatores de influência e de diversos resultados (*outcomes*) que permitiu uma leitura mais integrada da experiência do cancro pediátrico. Para além desta grelha conceptual “macro”, apoiámo-nos no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), bem como na perspetiva transacional (Fiese & Sameroff, 1989) que proveram a fundamentação teórica de base para as nossas hipóteses e facilitaram a interpretação dos resultados da investigação.

Em segundo lugar, em termos metodológicos, destacamos: o tamanho da amostra (N total = 448 famílias) que possibilitou a análise das relações entre variáveis; a inclusão de relatos de dois informantes familiares (i.e., pais e crianças) e o uso de uma metodologia diádica, o que permitiu examinar os *efeitos do parceiro* (i.e., as influências entre os elementos da díade) em dois estudos (**Estudo III** e **VI**), de acordo com os modelos teóricos acima elencados. Ao incluir mais do que uma fonte de informação, consegue-se uma completa e abrangente compreensão dos resultados numa área que é, por definição, complexa e interdependente (Kazak et al., 2009). Esta abordagem multi-informante também foi alargada ao médico oncologista pediátrico, que classificou a intensidade do tratamento, permitindo, assim, uma diminuição do risco de viés (Kazak et al., 2012). Finalmente, recorreremos a técnicas estatísticas sofisticadas, tais como análises de moderação, de mediação e de equações estruturais, escassamente utilizadas na investigação nesta área. O recurso a estas técnicas permitiu examinar modelos teóricos complexos, especialmente o modelo socioecológico de adaptação e mudança que destaca a existência de vários fatores que concorrem em níveis diferentes e das influências mútuas. Além disso, o recurso a estas técnicas permitiu testar potenciais efeitos diretos, mecanismos e condições que sustentam os processos de adaptação das crianças e dos seus pais.

No que se refere ao desenho da investigação, a natureza longitudinal do estudo (**Estudo V**) permitiu não só identificar potenciais fatores de mudança ou de continuidade ao longo do tempo como a identificação de variáveis que são preditoras do funcionamento familiar. A inclusão de um estudo qualitativo (**Estudo VI**), permitiu-nos compreender a forma como a doença/tratamento influenciaram a vivência dos rituais familiares. Esta metodologia

parece-nos fundamental dada a natureza exploratória do estudo, pois permite uma avaliação mais rica da experiência subjetiva do cancro pediátrico. Trata-se de um estudo pioneiro da área dos rituais, em particular na área do cancro pediátrico. Além disso, a utilização de instrumentos com qualidades psicométricas já estabelecidas, de recortes de amostras distintos (especialmente o **Estudo V** e **VI**), mas sobretudo o uso de auto-relatos e de metodologias diversas de análise dos dados recolhidos, correspondem a mais um ponto forte deste trabalho. Adicionalmente, a disponibilização para o contexto português de dois instrumentos específicos para o cancro pediátrico, que apresentam boas características psicométricas, é outro ponto forte, lançando pontes entre a presente investigação e o futuro. Por fim, procurámos ainda, responder às indicações da APA, nomeadamente através do cálculo da magnitude do efeito em função das análises estatísticas propostas, da descrição da análise do poder estatístico e do respeito pelos princípios éticos, presente na Declaração de Helsínquia, tal como foi descrito no Capítulo II.

2.2. Limitações e pistas para investigações futuras

O presente trabalho apresenta limitações²⁵ que importa referir e considerar na interpretação dos resultados.

Em primeiro lugar, apesar de, globalmente, o tamanho da amostra do estudo ser adequado aos objetivos a que nos propusemos, este poderá ter sido uma limitação no **Estudo I, II e V**. Relativamente ao **Estudo I**, o reduzido número de crianças submetidos ao nível quatro ($n = 17$), nível máximo de intensidade do protocolo terapêutico, impôs alguma cautela na interpretação da ausência de diferenças na QdVrS entre crianças submetidas a tratamento de intensidade mais elevada (*muito intensivos vs. máxima intensidade*). Quanto ao **Estudo II**, o tamanho da amostra ($N = 332$) impossibilitou que se testasse a invariância do modelo de 2ª ordem, de acordo com a idade-grupo (crianças vs. adolescentes) e fases do cancro pediátrico (fase de tratamento vs. fase de pós-tratamento). Por fim, embora as análises de poder estatístico a posteriori tenham sugerido que o tamanho da amostra era adequado para detetar efeitos de magnitude média a elevada (Cohen, 1992), o reduzido tamanho da amostra do **Estudo V** ($N = 58$) poderá não ser suficiente para detetar efeitos médios e pequenos.

Em segundo lugar, o facto da totalidade (**Estudo IV**) ou da maioria da amostra (85.30% no **Estudo III**; 87.93% no **Estudo V**) ser constituída por mães, impossibilita/dificulta a generalização dos dados aos pais. Nesse sentido, estudos futuros deverão incluir uma amostra mais equilibrada ou, idealmente, incluir ambos os elementos do casal, para que se possa conhecer o processo de adaptação do pai (i.e., sexo masculino) e os *efeitos do parceiro* entre os elementos do casal e entre estes e a criança. Retomando a metáfora “living as a split family” (Long & Marsland, 2011, p. 70), seria interessante que estudos futuros conseguissem

²⁵ Os seis estudos que compõem este trabalho apresentam limitações específicas que já foram referidas em cada um desses estudos no Capítulo III. Desde modo, iremos apenas destacar algumas limitações que consideramos transversais.

aceder à “outra metade”, de forma a ter acesso ao sistema na sua totalidade e complexidade.

Em terceiro lugar, dada a natureza transversal de alguns estudos (**Estudo III e IV**), não foi possível conhecer a direção de causalidade entre as variáveis. Futuros estudos longitudinais são necessários para testar quer a direção dos efeitos quer a influência, ao longo do tempo, que as variáveis exercem entre si (p. ex. rituais familiares e coesão familiar).

Em quarto lugar, a baixa frequência de famílias de nível socioeconómico mais elevado exigiu a dicotomização desta variável (**Estudo III, IV e V**), o que limitou a nossa capacidade de determinar se o nível socioeconómico teria impacto nos resultados de adaptação. Estudos futuros beneficiariam se tivessem uma distribuição mais homogénea da amostra por nível sócioeconómico. Além disso, os resultados devem ser interpretados dentro do atual contexto económico português. Note-se que Portugal tem estado a experienciar uma crise económica nos últimos anos, um contexto macroeconómico que poderá exacerbar as dificuldades das famílias.

Em quinto lugar, além do tempo desde o diagnóstico (**Estudo IV e V**), das fases do cancro pediátrico (**Estudo III e IV**) e da intensidade do tratamento (**Estudo I**), seria interessante analisar a influência de outros fatores (ligados ao tratamento) na adaptação (p. ex. a adesão ao tratamento).

Apesar de as nossas variáveis (rituais familiares, esperança, coesão familiar) serem conceitos bastante universais (Barakat et al., 2010; Germann et al., 2015; Markson & Fiese, 2000), da intensidade do protocolo terapêutico para o cancro pediátrico seguir as diretrizes internacionais (Vassal et al., 2016) e da sobrecarga financeira ser comum (Warner et al., 2015), uma investigação transcultural poderia ser bastante elucidativa, na medida em que pode haver especificidades não contempladas no presente estudo, que poderão inviabilizar a generalização dos resultados a outros contextos socioculturais. Todavia, importa reforçar que estes dados são relevantes para o nosso contexto.

3. Implicações para a investigação e para a prática clínica

Não obstante das limitações, consideramos que os resultados do presente estudo oferecem importantes contributos e implicações para a investigação e prática clínica, que passamos, de seguida, a apresentar.

3.1. Implicações para a investigação

Este trabalho trouxe diversos contributos para a investigação relativa à adaptação ao cancro pediátrico, nomeadamente por ter procurado explorar não só o impacto da doença na criança e na família, mas também os fatores que influenciam este processo, sobrepondo-se à mera descrição dos dados e afastando-se de estudos comparativos.

Para que o estudo dessas variáveis pudesse ocorrer, foi necessário traduzir e validar um instrumento para avaliar a QdVrS –o PedsQL™ 3.0 *Cancer Module* (Varni et al., 2002) e um instrumento para classificar a intensidade do tratamento –o ITR 3.0 (Kazak et al., 2012), ambos específicos para o cancro pediátrico. Importa sublinhar que este foi o primeiro estudo a testar e a confirmar a estrutura fatorial original proposta por Varni et al. (2002). Através deste processo, permitimos que este instrumento possa ser utilizado para a população portuguesa, quer para investigações quer para clínica, uma vez que permite a deteção precoce de crianças em risco para pior QdVrS. De igual modo, a escala de classificação da intensidade do tratamento, enquanto medida objetiva e referencial comum para os diferentes tipos de cancro e tratamentos, poderá ser uma mais-valia para futuros estudos portugueses quer na área da Psicologia quer noutras áreas como por exemplo da Nutrição. Acreditamos que a disponibilização destes instrumentos à comunidade (clínica e científica) é, indubitavelmente, um importante contributo deste trabalho.

Tendo em conta os nossos resultados promissores em torno da esperança, considera-se que este constructo, muito utilizado no contexto da Psicologia Positiva, deve ser merecedor de atenção em futuros estudos no contexto da doença. Igualmente pertinente é a inclusão dos rituais familiares. Os rituais familiares revelaram ser uma variável central no estudo da adaptação, à semelhança do observado noutras condições crónicas de saúde (para uma revisão, consultar Crespo et al., 2013). Além disso, a especificidade do contexto oncológico não deve ser descurada. Para esse efeito, julgamos que poderia ser útil, no contexto da avaliação deste constructo, a criação de um módulo específico para avaliar a criação de novos rituais familiares específicos deste contexto (p. ex. os rituais que espontaneamente algumas famílias criam para marcar o final do tratamento). Parece-nos, assim, fundamental que a esperança e os rituais familiares continuem a ser considerados em estudos futuros que procurem compreender a adaptação e que possam alargar os indicadores de adaptação a variáveis como a adesão ao tratamento ou o crescimento pós-traumático. Tendo em conta os resultados do presente estudo que sugere a presença de relações complexas entre fatores de influência, aspeto que reitera a visão integrativa e complexa da adaptação, patente no modelo socioecológico de adaptação e mudança (Kazak, 1989; Kazak et al., 2009), consideramos ser útil que os estudos futuros continuem a desafiar a procura exclusiva de uma causalidade simples e linear. Seria, então, pertinente que futuras investigações clarificassem a forma como os rituais familiares e a esperança influenciam a adaptação e se articulam com outras variáveis psicossociais e clínicas de relevo.

Por fim, considerando a potencial influência de fatores inscritos no macrosistema (p. ex. cultura, o apoio do Estado para a prestação de cuidados a uma criança com cancro), no exossistema (como a rede de suporte e as condições de trabalho dos pais) ou de outros fatores inscritos no mesossistema (p. ex. relação entre profissionais de saúde e a família), que podem constranger ou apoiar a adaptação da família (Kazak et al., 2009), estudos posteriores

poderão considerar outros fatores além do sistema familiar, à luz do modelo socioecológico tal como já tinha sido sugerido por Brown (2002).

3.2. Implicações para a prática clínica

Consideramos que os resultados deste estudo podem ter implicações importantes para a intervenção psicológica e, em particular, para a prática clínica com crianças com cancro e seus pais.

3.2.1. Identificação das crianças e dos pais com maior risco de apresentar dificuldades de adaptação.

De acordo com o modelo de trabalho colaborativo e interdisciplinar é importante sensibilizar os profissionais de saúde (p. ex. médico oncologista pediátrico) para a heterogeneidade de percursos individuais e familiares nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Atendendo a que o nosso estudo mostrou que a intensidade do tratamento e a sobrecarga financeira podem estar associadas a dificuldades de adaptação individual das crianças e dos seus pais poderá ser útil ter estes dados em consideração.

Pelo conhecimento acerca do tratamento, nomeadamente da sua intensidade, o médico oncologista pediátrico pode exercer um papel fundamental na triagem e identificação de crianças que sejam submetidas a protocolos de tratamento mais intensivos. De igual forma, pelo contacto privilegiado com as famílias no âmbito da advocacia social, o assistente social também pode ser um elemento chave na sinalização e encaminhamento de famílias que possam apresentar níveis mais elevados de sobrecarga financeira. Dado que tratamentos mais intensivos e níveis mais elevados de sobrecarga financeira estavam associados a pior QdVrS (cf. **Estudo I**)²⁶ e a níveis mais elevados de sintomatologia psicopatológica (cf. **Estudo IV**)²⁷, estas famílias podem beneficiar de uma intervenção psicológica estruturada.

A título de exemplo, foi desenvolvido um instrumento, denominado Psychosocial Assessment Tool (PAT), com o objetivo de triar as famílias que apresentem maior risco psicossocial prévio. Este instrumento, desenvolvido por Kazak, Schneider, Didonato e Pai (2015), classifica cada família em um de três níveis de risco: universal (*universal*), alvo (*targeted*) ou risco clínico (*clinical/treatment*). O universal, na base da pirâmide, abrange crianças e famílias que são resilientes, apesar da angústia; o alvo, no meio da pirâmide, inclui um conjunto menor de famílias que experimentam sofrimento agudo e a presença de alguns fatores de risco psicossociais; o topo da pirâmide representa risco clínico e abrange as famílias que apresentam sofrimento persistente e/ou em escalada (Kazak, 2006; Kazak et al.,

²⁶ De acordo com o resultado do nosso **Estudo I**, as crianças com tratamentos *muito intensivos* e de *máxima intensidade*, apresentam pior adaptação, comparativamente às crianças submetidas a tratamentos *moderadamente intensivos*, na fase de tratamento.

²⁷ De acordo com o resultado do nosso **Estudo IV**, as mães que reportaram níveis mais elevados de sobrecarga financeira apresentavam níveis mais elevados de sintomatologia ansiosa e depressiva, nas fases de tratamento e de pós-tratamento.

2015). Para esta avaliação contribuem sete subescalas (estrutura/recursos; problemas familiares; apoio social; reações de *stress*; crenças familiares; problemas do paciente; problemas do irmão). Assim, e à semelhança do que acontece nos EUA, consideramos que seria particularmente útil a implementação da PAT, de forma sistemática, na medida em que poderia ajudar na triagem e alocação de recursos. Além disso, julgamos que seria útil analisar a forma como o risco psicossocial se articularia com as variáveis clínicas, individuais e familiares que verificamos serem preditoras da adaptação.

3.2.2. Intervenção psicológica

A natureza do nosso estudo não nos permite delinear um protocolo estruturado de intervenção; porém, permite-nos sublinhar algumas linhas orientadoras que podem ser pontos de partida para a definição futura de um protocolo de intervenção psicológica. Importa, ainda, salientar que nem todas as famílias necessitam de intervenção e esta deve ser adequada às necessidades de cada família em diferentes momentos da vivência da doença.

Os dados do presente estudo (**Estudo III**) sugerem a importância de considerar programas de intervenção que permitam desenvolver capacidades de pensar e planificar o futuro com esperança, o que pode permitir que as crianças e os pais lidem de forma mais eficaz e adaptativa com os desafios do cancro, nas fases de tratamento e de pós-tratamento. Assim, o psicólogo poderá trabalhar com a criança e com os pais no sentido de definir objetivos, identificar obstáculos e desenvolver caminhos alternativos para os alcançar. Intervenções que fomentem a esperança e uma visão positiva do futuro poderão potenciar nas crianças e nos seus pais a capacidade de perspetivar os passos a seguir para alcançar os objetivos e para lidar com os desafios. Face a obstáculos à concretização dos objetivos, a criança e os seus pais podem mobilizar os recursos necessários para ultrapassar as barreiras e/ou para gerar caminhos alternativos (Lopez, Floyd, Ulven, & Snyder, 2000). De acordo com S. J. Lopez, Rose, Robinson, Marques e Pais-Ribeiro (2009) o pensamento esperançoso é trabalhável e depois de “instalado” pode ser mobilizado para lidar com qualquer impedimento que surja à concretização de um objetivo ao longo da vida.

Dada a relação entre os componentes positivos do funcionamento familiar e a adaptação individual, será importante minorar os determinantes de influência negativa para o funcionamento familiar, como o evitamento na vinculação amorosa. A literatura indica que indivíduos mais evitantes tendem a desativar as suas experiências afetivas para evitar depender dos outros, bem como para descartar as necessidades emocionais dos seus parceiros em situação de *stress*, o que se pode refletir de forma negativa no funcionamento familiar (**Estudo V**), mas também na sua adaptação individual. Evidências recentes com casais indicam um decréscimo do evitamento após algumas sessões de terapia focada nas emoções (Burgess Moser et al., 2016). Tendo em conta a magnitude dos efeitos do evitamento para a satisfação do próprio e do cônjuge (Crespo et al., 2008; Mikulincer & Shaver, 2012) e o

impacto que isso tem no sistema familiar (Crespo, 2012; Mikulincer & Florian, 1999a), neste caso particular no significado dos rituais familiares e na percepção de coesão familiar dos pais e das crianças (**Estudo V**) e, por outro lado, a necessidade de um trabalho em equipa entre os elementos do casal (Van Schoors et al., 2015), sobretudo, na fase de tratamento, este tipo de trabalho com casais poderá ser especialmente frutífero. Alternativamente e dado o carácter tendencialmente estável das representações de vinculação, poderá ser pertinente trabalhar as consequências de maior evitamento. Nesse sentido, o psicólogo poderá implementar estratégias para modificar a avaliação que os pais com níveis mais elevados de evitamento fazem da situação de *stress*, ajudando-os a reforçar situações de interação, bem como de fornecimento e de procura de apoio/cuidados.

Na nossa investigação verificámos não só que a prática de rituais familiares significativos se constitui como um determinante positivo para a adaptação individual nas fases de tratamento e de pós-tratamento, como também que os rituais familiares têm funções relevantes como a coesão, a comunicação, a sensação de previsibilidade, o quebrar a rotina, a sensação de segurança, sendo algumas destas funções centrais à vida das famílias (Fiese, 2006). Neste sentido, torna-se essencial desenvolver estratégias para promover a ativação de rituais familiares que podem ter sido interrompidos (i.e., postos de lado; Imber-Black, 2014) ou sacrificados no que diz respeito à participação.

Famílias que rapidamente conseguem retomar a prática de rituais familiares em situações de mudança ou de *stress* demonstraram estabilidade e adaptação positiva (Fiese & Wamboldt, 2000); todavia, nem todas as famílias conseguem fazê-lo espontaneamente. Neste caso, o psicólogo poderá encorajar as famílias a retomar a prática dos rituais familiares significativos, a readaptá-los (i.e., fazer pequenas alterações de forma a não colidir com as novas exigências do tratamento) e a recuperar e/ou criar novos rituais para fazer face às atuais necessidades (Bennett, Wolin, & Reiss, 1988; Rogers & Holloway, 1991; van der Hart, Witztum, & de Voogt, 1989). Tendo em conta o carácter potencialmente mutável dos rituais e o facto de estes eventos estarem naturalmente presentes no quotidiano das famílias (Crespo, 2007; Fiese, 2006), estes têm sido considerados importantes avenidas para a intervenção junto de indivíduos e famílias (Imber-Black, 2003). Simultaneamente, ao interferirmos nos rituais familiares estamos a fomentar a coesão familiar. Em suma, parece-nos importante o reconhecimento dos benefícios dos rituais familiares e do potencial “efeito dominó” que estes despoletam ao promoverem a coesão familiar. Aliás, tem sido defendido pelos autores nesta área que a promoção de rituais familiares significativos são uma forma concreta de promover a coesão familiar (Fiese, 2006).

De acordo com Kamal, Noor e Baharinc (2015), as tecnologias podem ser utilizadas ao serviço dos rituais familiares, reforçando os laços familiares, principalmente para as famílias que estão separadas fisicamente. Também Kupst e Patenaude (2016) referem que as redes sociais podem reduzir a sensação de isolamento entre os membros da família que estão na

Unidade de Oncologia Pediátrica e os membros da família que ficam em casa. Partindo destas ideias, no caso da readaptação poderá ser interessante o recurso às novas tecnologias para contornar as limitações impostas pela doença, tratamentos e/ou seus efeitos secundários. Por exemplo, para quebrar a sensação do “living as a split family” (Long & Marsland, 2011, p. 70), a família poderia ser incentivada a agendar uma vídeo-chamada para partilhar rituais familiares centrais como a hora de jantar. Como referem Fiese et al. (2002) e Roberts (2003b), é essencial que as próprias políticas que interferem na vida familiar e as próprias Unidades de oncologia pediátrica reconheçam a importância dos rituais familiares e permitam que as famílias os possam criar (p. ex. dar certificado no final do tratamento) e/ou reativar (p. ex. permitir a celebração do dia de aniversário do paciente). Neste sentido, importa salientar a iniciativa dos profissionais de saúde do Hospital Amaral Carvalho, em São Paulo, no Brasil, que desenvolveram o “ursinho elo”, que emite mensagens de voz dos familiares durante períodos de internamento em que a criança se encontra privada do contacto com os familiares (Hospital Amaral Carvalho, 2016, agosto 1).

A reflexão acerca dos nossos resultados permite, também, apontar para mais algumas implicações para a atuação do psicólogo. Por exemplo, é importante refletir acerca das influências dos pais na perceção que os filhos apresentam acerca do funcionamento familiar (p. ex. rituais familiares e da coesão familiar; cf. **Estudo III e V**) e das influências que as crianças podem exercer nos pais (Kazak et al., 1995), pelo que a eficácia da intervenção poderá ser potenciada pela inclusão de ambos. Porém, mesmo a intervenção individual, ainda que atenta a estas questões familiares, é relevante, uma vez que a intervenção no indivíduo é já uma intervenção no sistema.

Como já fomos demonstrando ao longo deste trabalho, para desenvolver intervenções úteis para esta população precisamos de nos afastar do modelo orientado para a patologia e para o défice (Kazak, 2005). Por sua vez, o modelo socioecológico de adaptação e mudança oferece uma estrutura útil não só para a compreensão da adaptação, mas também para orientar intervenções que promovam as competências (Barakat et al., 2003). Ancorado neste modelo, o presente estudo procurou compreender quais os fatores que influenciam a adaptação individual e familiar e que estão naturalmente presentes na família e/ou que são potencialmente modificáveis. Neste sentido, intervenções focadas na prática de rituais familiares significativos, na promoção da coesão familiar e de um pensamento mais esperançoso neste contexto de adversidade parecem ser fontes de força e de resiliência familiares na determinação de uma adaptação individual e familiar mais positiva.

Referências bibliográficas

- Aaronson, N. K., Meyerowitz, B. E., Bard, M., Bloom, J. R., Fawzy, F. I., Feldstein, M., . . . Ware, J. E., Jr. (1991). Quality of life research in oncology. Past achievements and future priorities. *Cancer*, *67*, 839-843.
- Ainsworth, M. S., & Bowlby, J. (1991). An ethological approach to personality development. *American Psychologist*, *46*, 333-341. doi:10.1037/0003-066X.46.4.333
- 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 (IOF)]. *Laboratório de Psicologia*, *9*, 173-187. doi:10.14417/lp.632
- Alderfer, M. A., & Kazak, A. E. (2006). Family issues when a child is on treatment for cancer. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 53-74). New York, NY: Oxford University Press.
- Alderfer, M. A., Mougianis, I., Barakat, L. P., Beele, D., DiTaranto, S., Hwang, W. T., . . . Kazak, A. E. (2009). Family psychosocial risk, distress, and service utilization in pediatric cancer: Predictive validity of the Psychosocial Assessment Tool. *Cancer*, *115*, 4339-4349. doi:10.1002/cncr.24587
- American Psychological Association. (2010). *Publication manual of the American Psychological Association* (6th ed.). Washington, DC: APA.
- Amorim, I. (2015). *Vivência parental da doença: Estudo com pais de crianças e jovens sobreviventes de cancro* (Dissertação de Mestrado não publicada), Universidade de Lisboa, Lisboa, Portugal.
- Amos Development Corporation (Producer). (2010). User-defined estimand: Multiple estimands [DVD]. Retrieved from <http://amosdevelopment.com/video>
- Araújo, M. (2011). *A doença oncológica na criança: Adaptação e bem-estar psicológico das mães, dos seus filhos e a relação entre ambos*. Lisboa: Coisas de Ler.
- Assembleia da República. (1997, maio, 30). Lei n.º 133-B/1997 de 30 de maio. *Diário da República*, *1.ª série*, *124*, 2624-2624. Retirado de http://www.pipop.info/fotos/editor2622/dl_2176_2003.pdf.
- Assembleia da República. (2008, janeiro, 7). Lei n.º 3/2008 de 7 de janeiro. *Diário da República*, *1.ª série*, *4*, 154-164. Retirado de <http://www.dge.mec.pt/sites/default/files/EInfancia/documentos/0015400164.pdf>.
- Assembleia da República. (2009, agosto, 6). Lei n.º 71/2009 de 6 de agosto. *Diário da República*, *1.ª série*, *151*, 5100-5102. Retirado de <http://www.sg.min->

- saude.pt/NR/rdonlyres/5102CD5876EC-6245-5149E5108-B5104E5102-5162C5181CA5793A5107/5100/0510005102.pdf.
- Associação de Pais Heróis. (2016, agosto 1). Direitos dos pais de crianças/jovens com cancro: Legislação desajustada ou inexistente, falta de apoio financeiro [blog post]. from <http://www.paisherois.org/>
- Barakat, L. P., Kunin-Batson, A., & Kazak, A. E. (2003). Child Health Psychology. In I. B. Weiner, A. M. Nezu, C. M. Nezu, & P. A. Geller (Eds.), *Handbook of psychology* (Vol. 9, pp. 439-464). Hoboken, NJ: John Wiley & Sons, Inc.
- Barakat, L. P., Marmer, P. L., & Schwartz, L. A. (2010). Quality of life of adolescents with cancer: Family risks and resources. *Health and Quality of Life Outcomes*, 8,63. doi:10.1186/1477-7525-8-63
- Barbarin, O., Hughes, D., & Chesler, M. (1985). Stress, coping and marital function among parents of children with cancer. *Journal of Marriage and Family*, 47, 473-480.
- Barrera, M., Atenafu, E., & Pinto, J. (2009). Behavioral, social, and educational outcomes after pediatric stem cell transplantation and related factors. *Cancer*, 115, 880-889. doi:10.1002/cncr.24109
- Bartholomew, K. (1990). Avoidance of intimacy: An attachment perspective. *Journal of Social and Personal Relationships*, 7, 147-178. doi:10.1177/0265407590072001
- Bartholomew, K., & Horowitz, L. M. (1991). Attachment styles among young adults: A test of a four-category model. *Journal of Personality and Social Psychology*, 61, 226-244. doi:10.1037/0022-3514.61.2.226
- Baskin, C. H., Forehand, R., & Saylor, C. (1985). Predictors of psychological adjustment in mothers of children with cancer. *Journal of Psychosocial Oncology*, 3, 43-54. doi:10.1300/J077v03n03_04
- Batalha, L., Fernandes, A., Campos, C., Santos, S., Crespo, C., Loureiro, L., . . . Gonçalves, A. M. (2016). Validação da versão Portuguesa (Portugal) do heterorrelato do PedsQL™ 3.0 Cancer Module [Validation of the Portuguese (Portugal) Version of the PedsQL™ 3.0 Cancer Module Proxy Report]. *Acta Pediátrica Portuguesa*, 47, 11-20.
- Bazeley, P., & Jackson, K. (2013). *Qualitative data analysis with NVIVO* (2nd ed.). Thousand Oaks: SAGE Publications Inc.
- Beck, A. T. (2008). The evolution of the cognitive model of depression and its neurobiological correlates. *The American Journal of Psychiatry*, 165, 969-977. doi:10.1176/appi.ajp.2008.08050721
- Beek, L., Schappin, R., Gooskens, R., Huisman, J., & Jongmans, M. (2015). Surviving a brain tumor in childhood: Impact on family functioning in adolescence. *Psycho-Oncology*, 24, 89-94. doi:10.1002/pon.3599
- Beer, D. (1992). Guidelines for interviewing children. In J. Garbarino, F. Stott, & Faculty of Erikson Institute (Eds.), *What children can tell us. Eliciting, interpreting, and*

- evaluating critical information from children* (pp. 170-202). San Francisco, CA: Jossey-Bass Publishers.
- Bennett, L. A., Wolin, S. J., & Reiss, D. (1988). Deliberate Family Process: A strategy for protecting children of alcoholics. *British Journal of Addiction*, *83*, 821-829. doi:10.1111/j.1360-0443.1988.tb00517.x
- Berg, C. J., Rapoff, M. A., Snyder, C. R., & Belmont, J. M. (2007). The relationship of children's hope to pediatric asthma treatment adherence. *The Journal of Positive Psychology*, *2*, 176-184. doi:10.1080/17439760701409629
- Bhat, S. R., Goodwin, T. L., Burwinkle, T. M., Lansdale, M. F., Dahl, G. V., Huhn, S. L., . . . Fisher, P. G. (2005). Profile of daily life in children with brain tumors: An assessment of health-related quality of life. *Journal of Clinical Oncology*, *23*, 5493-5500. doi:10.1200/jco.2005.10.190
- Bjelland, I., Dahl, A. A., Haug, T. T., & Neckelmann, D. (2002). The validity of the Hospital Anxiety and Depression Scale. An updated literature review. *Journal of Psychosomatic Research*, *52*, 69-77. doi:10.1016/S0022-3999(01)00296-3
- Bloomberg, L. D., & Volpe, M. (2008). *Completing your qualitative dissertation: A roadmap from beginning to end*. Thousand Oaks, CA: SAGE Publications, Inc.
- Bona, K., Dussel, V., Orellana, L., Kang, T., Geyer, R., Feudtner, C., & Wolfe, J. (2014). Economic impact of advanced pediatric cancer on families. *Journal of Pain and Symptom Management*, *47*, 594-603. doi:10.1016/j.jpainsymman.2013.04.003
- Bossard, J. H. S., & Boll, E. S. (1950). *Ritual in family living: A contemporary study*. Philadelphia, PA: University of Pennsylvania Press.
- Bowlby, J. (1973). *Attachment and loss (Vol. 2). Separation: Anxiety and anger*. New York, NY: Basic Books.
- Bowlby, J. (1982). *Attachment and loss (Vol. 1). Attachment* (2nd ed.). New York, NY: Basic Books.
- Bowlby, J. (1988). *A secure base: Parent-child attachment and healthy human development*. New York, NY: Basic Books.
- Bradford, R. (1997). *Children, families and chronic disease: Psychological models and methods of care*. London, UK: Routledge.
- Bragado, C., Hernández-Lloreda M. J., Sánchez-Bernardos M. L., & Urbano, S. (2008). Autoconcepto físico, ansiedad, depresión y autoestima en niños con cáncer y niños sanos sin historia de cáncer [Physical self-concept, anxiety, depression and self-esteem in cancer-ill vs. healthy children without cancer background]. *Psicothema*, *20*, 413-419.
- Brennan, K. A., Clark, C. L., & Shaver, P. R. (1998). Self-report measurement of adult romantic attachment: An integrative overview. In A. Simpson & W. S. Rholes (Eds.), *Attachment theory and close relationships* (pp. 46-76). New York, NY: Guilford Press.

- Bronfenbrenner, U. (1977). Toward an experimental ecology of human development. *American Psychologist*, 32, 513-531. doi:10.1037/0003-066X.32.7.513
- Brown, R. T. (2002). Society of pediatric psychology presidential address: Toward a social ecology of pediatric psychology. *Journal of Pediatric Psychology*, 27, 191-201. doi:10.1093/jpepsy/27.2.191
- Buchbinder, M., Longhofer, J., & McCue, K. (2009). Family routines and rituals when a parent has cancer. *Families Systems and Health*, 27, 213-227. doi:10.1037/a0017005
- Burgess Moser, M., Johnson, S. M., Dagleish, T. L., Lafontaine, M. F., Wiebe, S. A., & Tasca, G. A. (2016). Changes in relationship-specific attachment in Emotionally Focused Couple Therapy. *Journal of Marital and Family Therapy*, 42, 231-245. doi:10.1111/jmft.12139
- Byng-Hall, J. (1995). Creating a secure family base: Some implications of attachment theory for family therapy. *Family Process*, 34, 45-58. doi:10.1111/j.1545-5300.1995.00045.x
- Caldas, G. (2014, November). *Registo Oncológico Pediátrico Português*. Paper presented at the 1º Seminário de Oncologia Pediátrica, Lisboa. [PowerPoint slides]. Retrieved from http://www.fund-ruisoriodecastro.org/ResourcesUser/Imagens/Conteudos/Agenda/Seminario/1%C2%BAPainel5_ROPP_Dra_Gabriela_Caldas.pdf
- Cardarelli, C., Cereda, C., Masiero, L., Viscardi, E., Faggini, R., Laverda, A., . . . Perilongo, G. (2006). Evaluation of health status and health-related quality of life in a cohort of Italian children following treatment for a primary brain tumor. *Pediatric Blood and Cancer*, 46, 637-644. doi:10.1002/pbc.20480
- Carona, C., Silva, N., Moreira, H., Canavarro, M. C., & Bullinger, M. (2015). Does the small fit them all? The utility of Disabkids-10 Index for the assessment of pediatric health-related quality of life across age-groups, genders, and informants. *Journal of Child Health Care*, 19, 466-477. doi:10.1177/1367493514522867
- Carver, C. S., Pozo, C., Harris, S. D., Noriega, V., Scheier, M. F., Robinson, D. S., . . . Clark, K. C. (1993). How coping mediates the effect of optimism on distress: A study of women with early stage breast cancer. *Journal of Personality and Social Psychology*, 65, 375-390. doi:10.1037/0022-3514.65.2.375
- Charmaz, K. (2006). *Constructing grounded theory: A practical guide through qualitative analysis*. London: Sage.
- Chase, S. E. (2003). Learning to listen: Narrative principles in qualitative research methods courses. In R. Josselson, A. Lieblich, & D. P. McAdams (Eds.), *Up close and personal. The teaching and learning of narrative research* (pp. 79-99). Washington, DC: APA.
- Chien, L. Y., Lo, L. H., Chen, C. J., Chen, Y. C., Chiang, C. C., & Yu Chao, Y. M. (2003). Quality of life among primary caregivers of Taiwanese children with brain tumor. *Cancer Nursing*, 26, 305-311. doi:10.1097/00002820-200308000-00009

- Clarke-Steffen, L. (1997). Reconstructing reality: Family strategies for managing childhood cancer. *Journal of Pediatric Nursing*, *12*, 278-287. doi:10.1016/s0882-5963(97)80045-0
- Clarke, N. E., McCarthy, M. C., Downie, P., Ashley, D. M., & Anderson, V. A. (2009). Gender differences in the psychosocial experience of parents of children with cancer: A review of the literature. *Psycho-Oncology*, *18*, 907-915. doi:10.1002/pon.1515
- Cohen, J. (1992). A power primer. *Psychological Bulletin*, *112*, 155-159. doi:10.1037/0033-2909.112.1.155
- Cook, W. L., & Kenny, D.A. (2005). The Actor-Partner Interdependence Model: A model of bidirectional effects in developmental studies. *International Journal of Behavioral Development*, *29*, 101-109. doi:10.1080/01650250444000405
- Cornman, B. J. (1993). Childhood cancer: Differential effects on the family members. *Oncology Nursing Forum*, *20*, 1559-1566.
- Crespo, C. (2007). *Rituais familiares e o casal: Paisagens inter-sistêmicas* (Dissertação de Doutoramento não publicada), Universidade de Lisboa, Lisboa, Portugal.
- Crespo, C. (2011). “À mesa com a família”: Rituais familiares ao longo do ciclo de vida. In P. M. Matos, C. Duarte, & M. E. Costa (Eds.), *Temas contemporâneos da intervenção com famílias* (pp. 81-102). Porto: LivPsic.
- Crespo, C. (2012). Families as contexts for attachment: Reflections on theory, research, and the role of family rituals. *Journal of Family Theory and Review*, *4*, 290-298. doi:10.1111/j.1756-2589.2012.00136.x
- Crespo, C., Davide, I. N., Costa, M. E., & Fletcher, G. J. O. (2008). Family rituals in married couples: Links with attachment, relationship quality, and closeness. *Personal Relationships*, *15*, 191-203. doi:10.1111/j.1475-6811.2008.00193.x
- Crespo, C., Kiełpikowski, M., Pryor, J., & Jose, P. E. (2011). Family rituals in New Zealand families: Links to family cohesion and adolescents' well-being. *Journal of Family Psychology*, *25*, 184-193. doi:10.1037/a0023113
- Crespo, C., Santos, S., Canavarro, M. C., Kiełpikowski, M., Pryor, J., & Féres-Carneiro, T. (2013). Family routines and rituals in the context of chronic conditions: A review. *International Journal of Psychology*, *48*, 729-746. doi:10.1080/00207594.2013.806811
- Creswell, J. W. (2009). *Research design: Qualitative, quantitative, and mixed methods approaches* (3rd ed.). Thousand Oaks: Sage Publications.
- Creswell, J. W., & Miller, D. L. (2000). Determining validity in qualitative inquiry. *Theory Into Practice*, *39*, 124-130. doi:10.1207/s15430421tip3903_2
- Creswell, J. W., & Plano Clark, V. L. (2011). *Designing and conducting mixed methods research* (2nd ed.). Thousand Oaks, CA: SAGE Publications, Inc.

- Creswell, P. D., Wisk, L. E., Litzelman, K., Allchin, A., & Witt, W. P. (2014). Parental depressive symptoms and childhood cancer: The importance of financial difficulties. *Supportive Care in Cancer*, 22, 503-511. doi:10.1007/s00520-013-2003-4
- Dahlquist, L. M., Czyzewski, D. I., Copeland, K. G., Jones, C. L., Taub, E., & Vaughan, J. K. (1993). Parents of children newly diagnosed with cancer: Anxiety, coping, and marital distress. *Journal of Pediatric Psychology*, 18, 365-376.
- Daly, K. J. (1992). The fit between qualitative research and the study of families. In J. Gilgun, K. Daly, & G. Handel (Eds.), *Qualitative methods in family research* (pp. 3-11). Newbury Park, CA: Sage.
- Daly, K. J. (2007). *Qualitative methods for family studies and human development*. Thousand Oaks, CA: SAGE Publications, Inc.
- Daniel, J. (2012). *Sampling essentials: Practical guidelines for making sampling choices*. Thousand Oaks, CA: Sage Publications, Inc.
- Davis, E., Waters, E., Mackinnon, A., Reddihough, D., Graham, H. K., Mehmet-Radji, O., & Boyd, R. (2006). Paediatric quality of life instruments: A review of the impact of the conceptual framework on outcomes. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 48, 311-318. doi:10.1017/S0012162206000673
- de Vogli, R. (2014). The financial crisis, health and health inequities in Europe: The need for regulations, redistribution and social protection. *International Journal for Equity in Health*, 13, 58. doi:10.1186/s12939-014-0058-6
- Denzin, N. K., & Lincoln, Y. S. (2005). *The SAGE handbook of qualitative research* (3rd ed.). Thousand Oaks, CA: Sage Publications, Inc.
- Dias, P., & Gonçalves, M. (1999). Avaliação da ansiedade e da depressão em crianças e adolescentes (STAIC-C2, CMAS-R, FSSC-R e CDI): Estudo normativo para a população portuguesa. In A. P. Soares, S. Araújo, & S. Caires (Eds.), *Congresso Avaliação Psicológica: Formas e Contextos* (pp. 553-564). Braga: APPORT.
- Dickstein, S., Seifer, R., Hayden, L. C., Schiller, M., Sameroff, A. J., Keitner, G., . . . Magee, K. D. (1998). Levels of family assessment: II. Impact of maternal psychopathology on family functioning. *Journal of Family Psychology*, 12, 23-40. doi:10.1037/0893-3200.12.1.23
- Direção-Geral da Saúde. (2015). *A saúde dos Portugueses. Perspetiva 2015*. Lisboa: DGS.
- Doshi, K., Kazak, A. E., Hocking, M. C., DeRosa, B. W., Schwartz, L. A., Hobbie, W. L., . . . Deatrck, J. (2014). Why mothers accompany adolescent and young adult childhood cancer survivors to follow-up clinic visits. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 31, 51-57. doi:10.1177/1043454213518111
- Durie, B. G., Harousseau, J. L., Miguel, J. S., Blade, J., Barlogie, B., Anderson, K., . . . Rajkumar, S. V. (2006). International uniform response criteria for multiple myeloma. *Leukemia*, 20, 1467-1473. doi:10.1038/sj.leu.2404284

- Earle, E. A., Clarke, S. A., Eiser, C., & Sheppard, L. (2007). 'Building a new normality': Mothers' experiences of caring for a child with acute lymphoblastic leukaemia. *Child: Care, Health and Development*, 33, 155-160. doi:10.1111/j.1365-2214.2006.00638.x
- Eiser, C. (2004). *Children with cancer: The quality of life*. Mahwah, NJ: Lawrence Erlbaum Associates, Inc.
- Eiser, C., & Eiser, J. R. (2007). Mothers' ratings of quality of life in childhood cancer: Initial optimism predicts improvement over time. *Psychology & Health*, 22, 535-543. doi:10.1080/14768320701202074
- Eiser, C., & Morse, R. (2001). A review of measures of quality of life for children with chronic illness. *Archives of Disease in Childhood*, 84, 205-211. doi:10.1136/adc.84.3.205
- Eiser, C., & Upton, P. (2007). Costs of caring for a child with cancer: A questionnaire survey. *Child: Care, Health and Development*, 33, 455-459. doi:10.1111/j.1365-2214.2006.00710.x
- Eiser, C., Cool, P., Grimer, R., Carter, S., Ellis, A., Kopel, S., & Eiser, J. R. (1997). The role of monitoring in determining quality of life following treatment for a bone tumor. *International Journal of Behavioral Medicine*, 4, 397-414. doi:10.1207/s15327558ijbm0404_9
- Eiser, C., Eiser, J. R., & Stride, C. B. (2005). Quality of life in children newly diagnosed with cancer and their mothers. *Health and Quality of Life Outcomes*, 3, 29. doi:10.1186/1477-7525-3-29
- Eiser, C., Hill, J. J., & Vance, Y. H. (2000). Examining the psychological consequences of surviving childhood cancer: Systematic review as a research method in pediatric psychology. *Journal of Pediatric Psychology*, 25, 449-460. doi:10.1093/jpepsy/25.6.449
- Elkin, T. D., Phipps, S., Mulhern, R. K., & Fairclough, D. (1997). Psychological functioning of adolescent and young adult survivors of pediatric malignancy. *Medical and Pediatric Oncology*, 29, 582-588. doi:10.1002/(SICI)1096-911X(199712)29:6<3C582::AID-MPO133E3.3.CO;2-V
- Ellis, P. D. (2010). *The essential guide to effect sizes: Statistical power, meta-analysis, and the interpretation of research results*. Cambridge: Cambridge University Press.
- Engelen, V., Koopman, H. M., Detmar, S. B., Raat, H., van de Wetering, M. D., Brons, P., . . . Grootenhuis, M. A. (2011). Health-related quality of life after completion of successful treatment for childhood cancer. *Pediatric Blood and Cancer*, 56, 646-653. doi:10.1002/pbc.22795
- European DISABKIDS Group. (2006). *The DISABKIDS questionnaires: Quality of life questionnaires for children with chronic conditions*. Lengerich: Pabst Science Publishers.

- Faul, F., Erdfelder, E., Lang, A.-G., & Buchner, A. (2007). G*Power 3: A flexible statistical power analysis program for the social, behavioral, and biomedical sciences. *Behavior Research Methods*, 39, 175-191. doi:10.3758/BF03193146
- Felder-Puig, R., Frey, E., Proksch, K., Varni, J. W., Gadner, H., & Topf, R. (2004). Validation of the German version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ (PedsQL™) in childhood cancer patients off treatment and children with epilepsy. *Quality of Life Research*, 13, 223-234. doi:10.1023/B:QURE.0000015305.44181.e3
- Field, C., & Duchoslav, R. (2009). Family influence on adolescent treatment outcomes. In T. W. O'Donohue (Ed.), *Behavioral approaches to chronic disease in adolescence: A guide to integrative care* (pp. 47-54). New York, NY: Springer New York.
- Fiese, B. H. (2006). *Family routines and rituals*. New Haven, CT: Yale University Press.
- Fiese, B. H. (2007). Routines and rituals: Opportunities for participation in family health. *OTJR: Occupation Participation and Health*, 27, 415-495. doi:10.1177/153944920702705106
- Fiese, B. H., & Kline, C. A. (1993). Development of Family Ritual Questionnaire: Initial reliability and validation studies. *Journal of Family Psychology*, 6, 290-299. doi:10.1037/0893-3200.6.3.290
- Fiese, B. H., & Sameroff, A. J. (1989). Family context in pediatric psychology: A transactional perspective. *Journal of Pediatric Psychology*, 14, 293-314. doi:10.1093/jpepsy/14.2.293
- Fiese, B. H., & Wamboldt, F. S. (2000). Family routines, rituals, and asthma management: A proposal for family-based strategies to increase treatment adherence. *Families, Systems & Health*, 18. doi:10.1037/h0091864
- Fiese, B. H., Tomcho, T. J., Douglas, M., Josephs, K., Poltrock, S., & Baker, T. (2002). A review of 50 years of research on naturally occurring family routines and rituals: Cause for celebration? *Journal of Family Psychology*, 16, 381-390. doi:10.1037//0893-3200.16.4.381
- Fisher, R. A. (1925). *Statistical methods for research workers*. Edinburgh: Oliver and Boyd.
- Fletcher, P. C. (2010). My child has cancer: The costs of mothers' experiences of having a child with pediatric cancer. *Issues in Comprehensive Pediatric Nursing*, 33, 164-184. doi:10.3109/01460862.2010.498698
- Fonseca, A. C. (1992). Uma escala de ansiedade para crianças e adolescentes: "O que eu penso e o que eu sinto". *Revista Portuguesa de Pedagogia*, 26, 141-155.
- Fraley, R. C., Heffernan, M. E., Vicary, A. M., & Brumbaugh, C. C. (2011). The Experiences in Close Relationships-Relationship Structures questionnaire: A method for assessing attachment orientations across relationships. *Psychological Assessment*, 23, 615-625. doi:10.1037/a0022898

- Gerhardt, C. A., Salley, C. G., & Lehmann, V. (2016). The impact of pediatric cancer on the family. In A. N. Abrams, A. C. Muriel, & L. Wiener (Eds.), *Pediatric psychosocial oncology: Textbook for multidisciplinary care* (pp. 143-155). Switzerland: Springer International Publishing.
- Germann, J. N., Leonard, D., Stuenzi, T. J., Pop, R. B., Stewart, S. M., & Leavey, P. J. (2015). Hoping is coping: A guiding theoretical framework for promoting coping and adjustment following pediatric cancer diagnosis. *Journal of Pediatric Psychology, 40*, 846-855. doi:10.1093/jpepsy/jsv027
- Glaser, B. G. (2005). *The grounded theory perspective III: Theoretical coding*. Mill Valley, CA: Sociology Press.
- Goldbeck, L. (2001). Parental coping with the diagnosis of childhood cancer: Gender effects, dissimilarity within couples, and quality of life. *Psycho-Oncology, 10*, 325-335. doi:10.1002/pon.530
- 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
- Grootenhuis, M. A., & Last, B. F. (1997). Adjustment and coping by parents of children with cancer: A review of the literature. *Supportive Care in Cancer, 5*, 466-484. doi:10.1007/s005200050116
- Grootenhuis, M. A., & Last, B. F. (2001). Children with cancer with different survival perspectives: Defensiveness, control strategies, and psychological adjustment. *Psycho-Oncology, 10*, 305-314. doi:10.1002/pon.529
- Hardy, K. K., Bonner, M. J., Masi, R., Hutchinson, K. C., Willard, V. W., & Rosoff, P. M. (2008). Psychosocial functioning in parents of adult survivors of childhood cancer. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology, 30*, 153-159. doi:10.1097/MPH.0b013e31815814d9
- Harper, D. C. (1991). Paradigms for investigating rehabilitation and adaptation to childhood disability and chronic illness. *Journal of Pediatric Psychology, 16*, 533-542. doi:10.1093/jpepsy/16.5.533
- Harper, F. W., Peterson, A. M., Uphold, H., Albrecht, T. L., Taub, J. W., Orom, H., . . . Penner, L. A. (2012). Longitudinal study of parent caregiving self-efficacy and parent stress reactions with pediatric cancer treatment procedures. *Psycho-Oncology, 22*, 1658-1664. doi:10.1002/pon.3199
- Hazan, C., & Shaver, P. (1987). Romantic love conceptualized as an attachment process. *Journal of Personality and Social Psychology, 52*, 511-524. doi:10.1037/0022-3514.52.3.511
- Hexdall, C. M., & Huebner, E. S. (2007). Subjective well-being in pediatric oncology patients. *Applied Research in Quality of Life, 2*, 189-208. doi:10.1007/s11482-008-9037-7

- Hildenbrand, A. K., Clawson, K. J., Alderfer, M. A., & Marsac, M. L. (2011). Coping with pediatric cancer: Strategies employed by children and their parents to manage cancer-related stressors during treatment. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, 28, 344-354. doi:10.1177/1043454211430823
- Hobbie, W. L., Stuber, M., Meeske, K., Wissler, K., Rourke, M. T., Ruccione, K., . . . Kazak, A. E. (2000). Symptoms of posttraumatic stress in young adult survivors of childhood cancer. *Journal of Clinical Oncology*, 18, 4060-4066.
- Hojat, M., & Xu, G. (2004). A visitor's guide to effect sizes: Statistical significance versus practical (clinical) importance of research findings. *Advances in Health Sciences Education. Theory and Practice*, 9, 241-249. doi:10.1023/B:AHSE.0000038173.00909.f6
- Holmbeck, G. N., Zebracki, K., & Mcgoron, K. (2009). Research design and statistical applications. In M. C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (4th ed., pp. 52-70). New York, NY: The Guilford Press.
- Hospital Amaral Carvalho. (2016, agosto 1). O Ursinho Elo do Hospital Amaral Carvalho [blog post]. Retrieved from http://www.amaralcarvalho.org.br/amaralcarvalho/pt/destaques-conteudo/visualizar/coddestaques_conteudo/124/conheca-o-ursinho-elo-do-hospital-amaral-carvalho.html
- Howlader, N., Noone, A. M., Krapcho, M., Miller, D., Bishop, K., Altekruse, S. F., . . . Cronin, K. A. (2016). SEER Cancer Statistics Review, 1975-2013, National Cancer Institute. Bethesda, MD, http://seer.cancer.gov/csr/1975_2013/, based on November 2015 SEER data submission, posted to the SEER web site, April 2016.
- IBM Corp. Released 2012. IBM SPSS Statistics for Windows, Version 21.0. Armonk, NY: IBM Corp.
- Imber-Black, E. (2003). Ritual themes in families and family therapy. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2nd ed., pp. 49-87). New York, NY: Norton.
- Imber-Black, E. (2014). Will talking about it make it worse? Facilitating family conversations in the context of chronic and life-shortening illness. *Journal of Family Nursing*, 20, 151-163. doi:10.1177/1074840714530087
- Imber-Black, E., & Roberts, J. (1993). *Rituals for our times: Celebrating, healing, and changing our lives and our relationships*. New York, NY: Harper Perennial.
- International Agency for Research on Cancer. (2016, February 15). *International childhood cancer day: Much remains to be done to fight childhood cancer* [Press release]. Retrieved from http://www.iarc.fr/en/media-centre/pr/2016/pdfs/pr2241_E.pdf

- Iqbal, A., & Siddiqui, K. S. (2002). Depression among parents of children with acute lymphoblastic leukemia. *Journal of Ayub Medical College, Abbottabad: JAMC*, 14, 6-9.
- Kaatsch, P. (2010). Epidemiology of childhood cancer. *Cancer Treatment Reviews*, 36, 277-285. doi:10.1016/j.ctrv.2010.02.003
- Kamal, F. M., Noor, N. L. M., & Baharinc, H. (2015). Digital ritualized interaction: Towards conceptualizing mediated familial bonding via family connecting technology. *Jurnal Teknologi*, 77, 127-133. doi:10.11113/jt.v77.6053
- Katz, E. R., & Madan-Swain, A. (2006). Maximizing school, academic, and social outcomes in children and adolescents with cancer. In R.T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 313-338). New York, NY: Oxford University Press.
- Kazak, A. E. (1989). Families of chronically ill children: A systems and social-ecological model of adaptation and challenge. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 57, 25-30. doi:10.1037/0022-006X.57.1.25
- Kazak, A. E. (2001). Comprehensive care for children with cancer and their families: A social ecological framework guiding research, practice, and policy. *Children's services: Social policy, research, and practice*, 4, 217-233. doi:10.1207/S15326918CS0404_05
- Kazak, A. E. (2005). Evidence-based interventions for survivors of childhood cancer and their families. *Journal of Pediatric Psychology*, 30, 29-39. doi:10.1093/jpepsy/jsi013
- Kazak, A. E. (2006). Pediatric Psychosocial Preventative Health Model (PPPHM): Research, practice, and collaboration in pediatric family systems medicine. *Families, Systems, & Health*, 24, 381-395. doi:10.1037/1091-7527.24.4.381
- Kazak, A. E., & Meadows, A. T. (1989). Families of young adolescents who have survived cancer: Social-emotional adjustment, adaptability, and social support. *Journal of Pediatric Psychology*, 14, 175-191. doi:10.1093/jpepsy/14.2.175
- Kazak, A. E., Alderfer, M., Rourke, M. T., Simms, S., Streisand, R., & Grossman, J. R. (2004). Posttraumatic stress disorder (PTSD) and posttraumatic stress symptoms (PTSS) in families of adolescent childhood cancer survivors. *Journal of Pediatric Psychology*, 29, 211-219. doi:10.1093/jpepsy/jsh022
- Kazak, A. E., Barakat, L. P., Alderfer, M., Rourke, M. T., Meeske, K., Gallagher, P. R., . . . Stuber, M. L. (2001). Posttraumatic stress in survivors of childhood cancer and mothers: Development and validation of the Impact of Traumatic Stressors Interview Schedule (ITSIS). *Journal of Clinical Psychology in Medical Settings*, 8, 307-323. doi:10.1023/a:1011977031826
- Kazak, A. E., Christakis, D., Alderfer, M., & Coiro, M. J. (1994). Young adolescent cancer survivors and their parents: Adjustment, learning problems, and gender. *Journal of Family Psychology*, 8, 74-84. doi:10.1037/0893-3200.8.1.74

- Kazak, A. E., DeRosa, B. W., Schwartz, L. A., Hobbie, W., Carlson, C., Ittenbach, R. F., . . . Ginsberg, J. P. (2010). Psychological outcomes and health beliefs in adolescent and young adult survivors of childhood cancer and controls. *Journal of Clinical Oncology*, *28*, 2002-2007. doi:10.1200/jco.2009.25.9564
- Kazak, A. E., Hocking, M. C., Ittenbach, R. F., Meadows, A. T., Hobbie, W., DeRosa, B. W., . . . Reilly, A. (2012). A revision of the Intensity of Treatment Rating scale: Classifying the intensity of pediatric cancer treatment. *Pediatric Blood and Cancer*, *59*, 96-99. doi:10.1002/pbc.23320
- Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Crump, T. A. (2003). Families and other systems in pediatric psychology. In M. C. Roberts (Ed.), *Handbook of pediatric psychology* (3rd ed., pp. 159-175). New York, NY: The Guilford Press.
- Kazak, A. E., Rourke, M. T., & Navsaria, N. (2009). Families and other systems in pediatric psychology. In M. C. Roberts & R. G. Steele (Eds.), *Handbook of Pediatric Psychology* (4th ed., pp. 656-671). New York, NY: The Guilford Press.
- Kazak, A. E., Schneider, S., Didonato, S., & Pai, A. L. (2015). Family psychosocial risk screening guided by the Pediatric Psychosocial Preventative Health Model (PPPHM) using the Psychosocial Assessment Tool (PAT). *Acta Oncologica*, *54*, 574-580. doi:10.3109/0284186x.2014.995774
- Kazak, A. E., Segal-Andrews, A. M., & Johnson, K. (1995). Pediatric Psychology research and practice: A family/systems approach. In M. C. Roberts (Ed.), *Handbook of Pediatric Psychology* (2nd ed., pp. 84-104). New York, NY: Guilford Press.
- Kazak, A. E., Stuber, M. L., Barakat, L. P., Meeske, K., Guthrie, D., & Meadows, A. T. (1998). Predicting posttraumatic stress symptoms in mothers and fathers of survivors of childhood cancers. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, *37*, 823-831. doi:10.1097/00004583-199808000-00012
- Kenny, D. A., Kashy, D. A., & Cook, W. L. (2006). *Dyadic data analysis*. New York, NY: The Guilford Press.
- Kersun, L. S., Rourke, M. T., Mickley, M., & Kazak, A. E. (2009). Screening for depression and anxiety in adolescent cancer patients. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology*, *31*, 835-839. doi:10.1097/MPH.0b013e3181b8704c
- Klassen, A. F., Anthony, S. J., Khan, A., Sung, L., & Klaassen, R. (2011). Identifying determinants of quality of life of children with cancer and childhood cancer survivors: A systematic review. *Supportive Care in Cancer*, *19*, 1275-1287. doi:10.1007/s00520-011-1193-x
- Klassen, A. F., Dix, D., Papsdorf, M., Klaassen, R. J., Yanofsky, R., & Sung, L. (2012). Impact of caring for a child with cancer on single parents compared with parents from two-parent families. *Pediatric Blood and Cancer*, *58*, 74-79. doi:10.1002/pbc.22952

- Klassen, A. F., Klaassen, R., Dix, D., Pritchard, S., Yanofsky, R., O'Donnell, M., . . . Sung, L. (2008). Impact of caring for a child with cancer on parents' health-related quality of life. *Journal of Clinical Oncology*, *26*, 5884-5889. doi:10.1200/jco.2007.15.2835
- Klassen, A. F., Raina, P., McIntosh, C., Sung, L., Klaassen, R. J., O'Donnell, M., . . . Dix, D. (2011). Parents of children with cancer: Which factors explain differences in health-related quality of life. *International Journal of Cancer*, *129*, 1190-1198. doi:10.1002/ijc.25737
- Klassen, A. F., Raina, P., Reineking, S., Dix, D., Pritchard, S., & O'Donnell, M. (2007). Developing a literature base to understand the caregiving experience of parents of children with cancer: A systematic review of factors related to parental health and well-being. *Supportive Care in Cancer*, *15*, 807-818. doi:10.1007/s00520-007-0243-x
- Kowalczyk, J. R., Samardakiewicz, M., Fitzgerald, E., Essiaf, S., Ladenstein, R., Vassal, G., . . . Pritchard-Jones, K. (2014). Towards reducing inequalities: European standards of care for children with cancer. *European Journal of Cancer*, *50*, 481-485. doi:10.1016/j.ejca.2013.11.004
- Kowalczyk, J. R., Samardakiewicz, M., Pritchard-Jones, K., Ladenstein, R., Essiaf, S., Fitzgerald, E., . . . Vassal, G. (2016). European survey on standards of care in paediatric oncology centres. *European Journal of Cancer*, *61*, 11-19. doi:10.1016/j.ejca.2016.03.073
- Kupst, M. J. (1994). Coping with pediatric cancer: Theoretical and research perspectives. In D. J. Bearison & R. K. Mulhern (Eds.), *Pediatric Psychooncology: Psychological perspectives on children with cancer* (pp. 35-60). New York, NY: Oxford University Press.
- Kupst, M. J., & Bingen, K. (2006). Stress and coping in the pediatric cancer experience. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach*. (pp. 35-52). New York, NY: Oxford University Press.
- Kupst, M. J., & Patenaude, A. F. (2016). Coping and adaptation in pediatric cancer: Current perspectives. In A. N. Abrams, A. C. Muriel, & L. Wiener (Eds.), *Pediatric psychosocial oncology: Textbook for multidisciplinary care* (pp. 67-79). Switzerland: Springer International Publishing.
- Kupst, M. J., & Schulman, J. L. (1988). Long-term coping with pediatric leukemia: A six-year follow-up study. *Journal of Pediatric Psychology*, *13*, 7-22. doi:10.1093/jpepsy/13.1.7
- Kupst, M. J., Natta, M. B., Richardson, C. C., Schulman, J. L., Lavigne, J. V., & Das, L. (1995). Family coping with pediatric leukemia: Ten years after treatment. *Journal of Pediatric Psychology*, *20*, 601-617. doi:10.1093/jpepsy/20.5.601

- Kupst, M. J., Patenaude, A. F., Walco, G. A., & Sterling, C. (2003). Clinical trials in pediatric cancer: Parental perspectives on informed consent. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology*, 25, 787-790. doi:10.1097/00043426-200310000-00009
- Kupst, M. J., Schulman, J. L., Honig, G., Maurer, H., Morgan, E., & Fochtman, D. (1982). Family coping with childhood leukemia: One year after diagnosis. *Journal of Pediatric Psychology*, 7, 157-174. doi:10.1093/jpepsy/7.2.157
- Landolt, M. A., Vollrath, M., Niggli, F. K., Gnehm, H. E., & Sennhauser, F. H. (2006). Health-related quality of life in children with newly diagnosed cancer: A one year follow-up study. *Health and Quality of Life Outcomes*, 4, 63. doi:10.1186/1477-7525-4-63
- Larson, L. S., Wittrock, D. A., & Sandgren, A. K. (1994). When a child is diagnosed with cancer: I Sex differences in parental adjustment. *Journal of Psychosocial Oncology*, 12, 123-142. doi:10.1300/J077V12N01_07
- Lau, J. T., Yu, X. N., Chu, Y., Shing, M. M., Wong, E. M., Leung, T. F., . . . Mak, W. W. (2010). Validation of the Chinese version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ (PedsQL™) Cancer Module. *Journal of Pediatric Psychology*, 35, 99-109. doi:10.1093/jpepsy/jsp035
- Leach, M. S., & Braithwaite, D. O. (1996). A binding tie: Supportive communication of family kinkeepers. *Journal of Applied Communication Research*, 24, 200-216. doi:10.1080/00909889609365451
- Levi, R. B. (2006). Quality of life in childhood cancer: Meaning, methods, and missing pieces. In R. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 170-188). New York, NY: Oxford University Press.
- Lissauer, T., & Clayden, G. (2012). *Illustrated textbook of paediatrics* (4th ed.). Edinburgh: Mosby Elsevier.
- Litzelman, K., Barker, E., Catrine, K., Puccetti, D., Possin, P., & Witt, W. P. (2013). Socioeconomic disparities in the quality of life in children with cancer or brain tumors: The mediating role of family factors. *Psycho-Oncology*, 22, 1081-1088. doi:10.1002/pon.3113
- Loftand, J., & Loftland, L. H. (1984). *Analyzing social settings* (2nd ed.). Belmont, CA: Wadsworth.
- Long, K. A., & Marsland, A. L. (2011). Family adjustment to childhood cancer: A systematic review. *Clinical Child and Family Psychology Review*, 14, 57-88. doi:10.1007/s10567-010-0082-z
- Lopez, S. J., Floyd, R. K., Ulven, J. C., & Snyder, C. R. (2000). Hope therapy: Helping clients build a house of hope. In C. R. Snyder (Ed.), *Handbook of hope: Theory, measures, and applications* (pp. 123-150). San Diego, CA: Academic Press.

- Maeda, M. (2008). Late effects of childhood cancer: Life-threatening issues. *Journal of Nippon Medical School*, 75, 320-324. doi:10.1272/jnms.75.320
- Magal-Vardi, O., Laor, N., Toren, A., Strauss, L., Wolmer, L., Bielorai, B., . . . Toren, P. (2004). Psychiatric morbidity and quality of life in children with malignancies and their parents. *The Journal of Nervous and Mental Disease*, 192, 872-875. doi:10.1097/01.nmd.0000146881.00129.ec
- Main, M., Kaplan, N., & Cassidy, J. (1985). Security in infancy, childhood, and adulthood: A move to the level of representation. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 50, 66-104. doi:10.2307/3333827
- Makin, G., & Meyer, S. (2008). Oncology. In N. McIntosh, P. Helms, R. Smyth, & S. Logan (Eds.), *Forfar and Arneil's Textbook of Pediatrics* (7th ed., pp. 991-1038). New York, NY: Churchill Livingstone.
- Manne, S. L., Lesanics, D., Meyers, P., Wollner, N., Steinherz, P., & Redd, W. (1995). Predictors of depressive symptomatology among parents of newly diagnosed children with cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, 20, 491-510. doi:10.1093/jpepsy/20.4.491
- Markson, S., & Fiese, B. H. (2000). Family rituals as a protective factor for children with asthma. *Journal of Pediatric Psychology*, 25, 471-480. doi:10.1093/jpepsy/25.7.471
- Marques, S. C., Pais-Ribeiro, J. L., & Lopez, S. J. (2009). Validation of a Portuguese version of the Children's Hope Scale. *School Psychology International*, 30, 538-551. doi:10.1177/0143034309107069
- Marsland, A. L., Ewing, L. J., & Thompson, A. (2006). Psychological and social effects of surviving childhood cancer. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 237-265). New York, NY: Oxford University Press.
- Matos, P. M., & Fontaine, M. (1992). *Family Environment Scale-FES. Adaptação portuguesa [Family Environment Scale-SES. Portuguese version]*. Unpublished manuscript, Faculty of Psychology and Educational Sciences, University of Porto, Portugal.
- Maurice-Stam, H., Oort, F. J., Last, B. F., & Grootenhuis, M. A. (2008). Emotional functioning of parents of children with cancer: The first five years of continuous remission after the end of treatment. *Psycho-Oncology*, 17, 448-459. doi:10.1002/pon.1260
- McLean, T. W., & Wofford, M. M. (2015). Oncology. In K. J. Marcante & R. M. Kliegman (Eds.), *Nelson essentials of pediatrics* (7th ed., pp. 534-552). Philadelphia, PA: Elsevier.
- Meckler, G., & Lindemulder, S. (2009). Fever and neutropenia in pediatric patients with cancer. *Emergency Medicine Clinics of North America*, 27, 525-544. doi:10.1016/j.emc.2009.04.007

- Meeske, K., Katz, E. R., Palmer, S. N., Burwinkle, T., & Varni, J. W. (2004). Parent proxy-reported health-related quality of life and fatigue in pediatric patients diagnosed with brain tumors and acute lymphoblastic leukemia. *Cancer*, *101*, 2116-2125. doi:10.1002/cncr.20609
- Miedema, B., Easley, J., Fortin, P., Hamilton, R., & Mathews, M. (2008). The economic impact on families when a child is diagnosed with cancer. *Current Oncology*, *15*, 173-178. doi:10.3747/co.v15i4.260
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1999a). The association between parental reports of attachment style and family dynamics, and offspring's reports of adult attachment style. *Family Process*, *38*, 243-257. doi:10.1111/j.1545-5300.1999.00243.x
- Mikulincer, M., & Florian, V. (1999b). The association between spouses' self-reports of attachment styles and representations of family dynamics. *Family Process*, *38*, 69-83. doi:10.1111/j.1545-5300.1999.00069.x
- Mikulincer, M., & Shaver, P. R. (2007). *Attachment in adulthood: Structure, dynamics, and change*. New York, NY: The Guilford Press.
- Mikulincer, M., & Shaver, P. R. (2012). Adult attachment orientations and relationship processes. *Journal of Family Theory and Review*, *4*, 259-274. doi:10.1111/j.1756-2589.2012.00142.x
- Mikulincer, M., Florian, V., Cowan, P. A., & Cowan, C. P. (2002). Attachment security in couple relationships: A systemic model and its implications for family dynamics. *Family Process*, *41*, 405-434. doi:10.1111/j.1545-5300.2002.41309.x
- Moody, K., Finlay, J., Mancuso, C., & Charlson, M. (2006). Feasibility and safety of a pilot randomized trial of infection rate: Neutropenic diet versus standard food safety guidelines. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology*, *28*, 126-133. doi:10.1097/01.mph.0000210412.33630.fb
- Moos, R. H., & Moos, B. S. (1986). *Family Environment Scale Manual* (2nd ed.). Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.
- Mor, M., Gilad, G., Kornreich, L., Fisher, S., Yaniv, I., & Levy, I. (2011). Invasive fungal infections in pediatric oncology. *Pediatric Blood and Cancer*, *56*, 1092-1097. doi:10.1002/pbc.23005
- Moreira, H., Martins, T., Gouveia, M. J., & Canavarro, M. C. (2015). Assessing adult attachment across different contexts: Validation of the Portuguese version of the Experiences in Close Relationships-Relationship Structures questionnaire. *Journal of Personality Assessment*, *97*, 22-30. doi:10.1080/00223891.2014.950377.
- Morris, J. A. B., Blount, R. L., Cohen, L. C., Frank, N. C., Madan-Swain, Avi, & Brown, R. T. (1997). Family functioning and behavioral adjustment in children with leukemia and their healthy peers. *Children's Health Care*, *26*, 61-75. doi:10.1207/s15326888chc2602_1

- Muehlan, H. (2010). *Developing the DCGM-12: A short-form of the DISABKIDS condition-generic module assessing health related quality of life in children and adolescents with chronic conditions* (Unpublished doctoral dissertation), University of Hamburg, Germany.
- Murphy, L. B. (1974). Coping, vulnerability and resilience in childhood. In G. V. Coelho, D. A. Hamburg, & J. E. Adams (Eds.), *Coping and adaptation* (pp. 69-100). New York, NY: Basic Books.
- Murphy, S. L., Xu, J., & Kochanek, K. D. (2013). Deaths: Final Data for 2010. *National Vital Statistics Reports*, 61. doi:10.1136/vr.h753
- Nicholls, W., Hulbert-Williams, N., & Bramwell, R. (2014). The role of relationship attachment in psychological adjustment to cancer in patients and caregivers: A systematic review of the literature. *Psycho-Oncology*, 23, 1083-1095. doi:10.1002/pon.3664
- Olson, D. H. (2000). Circumplex Model of Marital and Family Systems. *Journal of Family Therapy*, 22, 144-167. doi:10.1111/1467-6427.00144
- Ordem dos Psicólogos Portugueses. (2011). *Código deontológico*. Lisboa: OPP.
- Ozono, S., Saeki, T., Mantani, T., Ogata, A., Okamura, H., Nakagawa, S., . . . Yamawaki, S. (2010). Psychological distress related to patterns of family functioning among Japanese childhood cancer survivors and their parents. *Psycho-Oncology*, 19, 545-552. doi:10.1002/pon.1606
- Pai, A. L. H., Greenley, R. N., Lewandowski, A., Drotar, D., Youngstrom, E., & Peterson, C. C. (2007). A meta-analytic review of the influence of pediatric cancer on parent and family functioning. *Journal of Family Psychology*, 21, 407-415. doi:10.1037/0893-3200.21.3.407
- Pais Ribeiro, J., Pedro, L., & Marques, S. (2006). Contribuição para o estudo psicométrico e estrutural da escala de esperança (de futuro). In: I. Leal, J. Pais-Ribeiro, & S. Neves, (Edts.). *Actas do 6º Congresso Nacional de Psicologia da Saúde* (pp.75-81). Lisboa: ISPA
- Pais-Ribeiro, J., Silva, I., Ferreira, T., Martins, A., Meneses, R., & Baltar, M. (2007). Validation study of a Portuguese version of the Hospital Anxiety and Depression Scale. *Psychology, Health and Medicine*, 12, 225-235. doi:10.1080/13548500500524088
- Patterson, J. M., Holm, K. E., & Gurney, J. G. (2004). The impact of childhood cancer on the family: A qualitative analysis of strains, resources, and coping behaviors. *Psycho-Oncology*, 13, 390-407. doi:10.1002/pon.761
- Patton, M. Q. (2002). *Qualitative research & evaluation methods*. London: Sage Publication.

- Pedro, M. F., Ribeiro, T., & Shelton, K. H. (2015). Romantic attachment and family functioning: The mediating role of marital satisfaction. *Journal of Child and Family Studies*, 24, 3482-3495. doi:10.1007/s10826-015-0150-6
- Pendley, J. S., Dahlquist, L. M., & Dreyer, Z. (1997). Body image and psychosocial adjustment in adolescent cancer survivors. *Journal of Pediatric Psychology*, 22, 29-43. doi:10.1093/jpepsy/22.1.29
- Pereira, M., Melo, C., Gameiro, S., & Canavarro, M. C. (2011). Estudos psicométricos da versão em Português Europeu do índice de qualidade de vida EUROHIS-QOL-8. *Laboratório de Psicologia*, 9, 109-123.
- Phipps, S., & Srivastava, D. K. (1997). Repressive adaptation in children with cancer. *Health Psychology*, 16, 521-528. doi:10.1037/0278-6133.16.6.521
- Pinto, A. (2010). *Vivências de um médico oncologista pediátrico* (2ª ed.). Porto: Edições Afrontamento.
- Price, J., Kassam-Adams, N., Alderfer, M. A., Christofferson, J., & Kazak, A. E. (2016). Systematic Review: A Reevaluation and Update of the Integrative (Trajectory) Model of Pediatric Medical Traumatic Stress. *Journal of Pediatric Psychology*, 41, 86-97. doi:10.1093/jpepsy/jsv074
- Pritchard-Jones, K., Lewison, G., Camporesi, S., Vassal, G., Ladenstein, R., Benoit, Y., . . . Sullivan, R. (2011). The state of research into children with cancer across Europe: New policies for a new decade. *E-cancer Medical Science*, 5, 210. doi:10.3332/ecancer.2011.210
- Radcliffe, J., Barakat, L. P., & Boyd, R. C. (2006). Family systems issues in pediatric sickle cell disease. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 496-513). New York, NY: Oxford University Press.
- Raina, P., O'Donnell, M., Schweltnus, H., Rosenbaum, P., King, G., Brehaut, J., . . . Wood, E. (2004). Caregiving process and caregiver burden: Conceptual models to guide research and practice. *BioMed Central Pediatrics*, 4, 1. doi:10.1186/1471-2431-4-1
- Rait, D. S., Ostroff, J. S., Smith, K., & Cella, D. F. (1992). Lives in a balance: Perceived family functioning and the psychosocial adjustment of adolescent cancer survivors. *Family Process*, 31, 383-397. doi:10.1111/j.1545-5300.1992.00383.x
- Rand, K. L., & Cheavens, J. S. (2009). Hope theory. In S. J. Lopez & C. R. Snyder (Eds.), *The Oxford handbook of positive psychology* (2nd ed., pp. 323-333). New York, NY: Oxford University Press.
- Reimers, T. S., Ehrenfels, S., Mortensen, E. L., Schmiegelow, M., Sonderkaer, S., Carstensen, H., . . . Muller, J. (2003). Cognitive deficits in long-term survivors of childhood brain tumors: Identification of predictive factors. *Medical and Pediatric Oncology*, 40, 26-34. doi:10.1002/mpo.10211

- Reiss, M. D. (1982). The working family: A researcher's view of health in the household. *American Journal of Psychiatry*, 139, 1412-1420. doi:10.1176/ajp.139.11.1412
- Reynolds, C. R., & Richmond, B. O. (2008). *RCMAS-2 - Revised children's manifest anxiety scale* (2nd ed.). Los Angeles, CA: Western Psychological Services.
- Roberts, J. (2003a). Ritual themes in families and family therapy. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2nd ed., pp. 49-87). New York, NY: Norton.
- Roberts, J. (2003b). Rituals and serious illness: Marking the path. In E. Imber-Black, J. Roberts, & R. A. Whiting (Eds.), *Rituals in families and family therapy* (2nd ed., pp. 237-252). New York, NY: Norton.
- Robinson, K. E., Gerhardt, C. A., Vannatta, K., & Noll, R. B. (2007). Parent and family factors associated with child adjustment to pediatric cancer. *Journal of Pediatric Psychology*, 32, 400-410. doi:10.1093/jpepsy/jsl038
- Rodger, S., & Umaibalan, V. (2011). The routines and rituals of families of typically developing children compared with families of children with autism spectrum disorder: An exploratory study. *The British Journal of Occupational Therapy*, 74, 20-26. doi:10.4276/030802211x12947686093567
- Rodgers, C., Withycombe, J., & Hockenberry, M. (2016). Physical impact of pediatric cancer and its treatment. In A. N. Abrams, A. C. Muriel, & L. Wiener (Eds.), *Pediatric psychosocial oncology: Textbook for multidisciplinary care* (pp. 25-50). Switzerland: Springer International Publishing.
- Rodriguez, E. M., Dunn, M. J., Zuckerman, T., Gerhardt, C. A., & Compas, B. E. (2012). Cancer-related sources of stress for children with cancer and their parents. *Journal of Pediatric Psychology*, 37, 185-197. doi:10.1093/jpepsy/jsr054
- Rogers, J. C., & Holloway, R. L. (1991). Family rituals and the care of individual patients. *Family Systems Medicine*, 9, 249-259. doi:10.1037/h0089223
- Rolland, J. S. (1987). Chronic illness and the life cycle: A conceptual framework. *Family Process*, 26, 203-221. doi:10.1111/j.1545-5300.1987.00203.x
- Rolland, J. S. (2012). Mastering family challenges in serious illness and disability. In F. Walsh (Ed.), *Normal family processes* (4th ed., pp. 452-482). New York, NY: Guilford Press.
- RORENO. (2016). *Registo oncológico nacional 2010*. Porto: Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil - EPE.
- Rosenberg, A. R., Wolfe, J., Bradford, M. C., Shaffer, M. L., Yi-Frazier, J. P., Curtis, J. R., . . . Baker, K. S. (2014). Resilience and psychosocial outcomes in parents of children with cancer. *Pediatric Blood and Cancer*, 61, 552-557. doi:10.1002/pbc.24854
- Rosenthal, C. S., & Marshall, V. W. (1988). Generation transmission of family ritual. *American Behavioral Scientist*, 31, 669-684.

- Rowland, J. H. (2006). Survivorship research: Past, present, and future. In A. E. Chang, D. F. Hayes, H. I. Pass, R. M. Stone, P. A. Ganz, T. J. Kinsella, J. H. Schiller, & V. J. Strecher (Eds.), *Oncology: An evidence-based approach* (pp. 1763-1777). New York, NY: Springer New York.
- Russell, K. M., Hudson, M., Long, A., & Phipps, S. (2006). Assessment of health-related quality of life in children with cancer: Consistency and agreement between parent and child reports. *Cancer*, *106*, 2267-2274. doi:10.1002/cncr.21871
- Salvador, Á., Crespo, C., Martins, A. R., Santos, S., & Canavarro, M. C. (2014). Parents' perceptions about their child's illness in pediatric cancer: Links with caregiving burden and quality of life. *Journal of Child and Family Studies*, *24*, 1129-1140. doi:10.1007/s10826-014-9921-8
- Sameroff, A. J., & Chandler, M. J. (1975). Reproductive risk and the continuum of caretaking casualty. In F. D. Horowitz, M. Hetherington, S. Scarr-Salapate, & G. Siege (Eds.), *Review of child development research* (pp. 187-244). Chicago, IL: University of Chicago Press.
- Santos, M., & Fontaine, A. M. (1995). Avaliação do ambiente familiar por crianças e pré-adolescentes: Alguns aspectos da adaptação da FES de Moos & Moos [Assessment of the family environment by children and pre-adolescents: Some aspects of the adaptation of the Moos & Moos FES]. In L. S. Almeida & I. S. Ribeiro (Orgs.), *Actas da III Conferência Internacional: Formas e Contextos* (pp. 421-430). Braga: APPORT.
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., & Pinto, A. (2014). Intensidade do tratamento e qualidade de vida relacionada com a saúde no cancro pediátrico: Resultados da versão Portuguesa da Escala de Classificação da Intensidade do Tratamento 3.0 [Intensity of treatment and health-related quality of life in pediatric cancer: Findings from the Portuguese version of Intensity of Treatment Rating Scale 3.0]. *Psychology, Community & Health*, *3*, 158-171. doi:10.5964/pch.v3i3.97
- Santos, S., Crespo, C., Canavarro, M. C., Fernandes, A., Batalha, L., Campos, D., & Pinto, A. (2016). Psychometric study of the European Portuguese version of the PedsQL 3.0 Cancer Module. *Health and Quality of Life Outcomes*, *14*, 20. doi:10.1186/s12955-016-0421-y
- Santos, S., Crespo, C., Silva, N., & Canavarro, M. C. (2012). Quality of life and adjustment in youths with asthma: The contributions of family rituals and the family environment. *Family Process*, *51*, 557-569. doi:10.1111/j.1545-5300.2012.01416.x
- Savage, E., Riordan, A. O., & Hughes, M. (2009). Quality of life in children with acute lymphoblastic leukaemia: A systematic review. *European Journal of Oncology Nursing*, *13*, 36-48. doi:10.1016/j.ejon.2008.09.001
- Sawyer, M. G., Streiner, D. L., Antoniou, G., Toogood, I., & Rice, M. (1998). Influence of parental and family adjustment on the later psychological adjustment of children

- treated for cancer. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 37, 815-822. doi:10.1097/00004583-199808000-00011
- Sawyer, M., Antoniou, G., Toogood, I., & Rice, M. (1997). Childhood cancer: A two-year prospective study of the psychological adjustment of children and parents. *Journal of the American Academy of Child and Adolescent Psychiatry*, 36, 1736-1743. doi:10.1097/00004583-199712000-00022
- Sawyer, M., Antoniou, G., Toogood, I., & Rice, M. (1999). A comparison of parent and adolescent reports describing the health-related quality of life of adolescents treated for cancer. *International Journal of Cancer Supplement*, 12, 39-45. doi:10.1002/(SICI)1097-0215(1999)83:12+%3C39::AID-IJC8%3E3.0.CO;2-7
- Sawyer, M., Antoniou, G., Toogood, I., Rice, M., & Baghurst, P. (2000). Childhood cancer: A 4-year prospective study of the psychological adjustment of children and parents. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology*, 22, 214-220. doi:10.1097/00043426-200005000-00006
- Scarpelli, A. C., Paiva, S. M., Pordeus, I. A., Ramos-Jorge, M. L., Varni, J. W., & Allison, P. J. (2008). Measurement properties of the Brazilian version of the Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL™) cancer module scale. *Health and Quality of Life Outcomes*, 6, 7. doi:10.1186/1477-7525-6-7
- Scheurer, M. E., Lupo, P. J., & Bondy, M. L. (2015). Epidemiology of childhood cancer. In A. P. Pizzo & D. G. Poplack (Eds.), *Principles and practice of pediatric oncology* (7th ed., pp. 1-12). Philadelphia, PA: Wolters Kluwer.
- Schmidt, S., Mühlhan, H., & Power, M. (2006). The EUROHIS-QOL 8-item index: Psychometric results of a cross-cultural field study. *European Journal of Public Health*, 16, 420-428. doi:10.1093/eurpub/cki155
- Schwab, N., & Gelfman, M. H. B. (2005). *Legal issues in school health services: A resource for school administrators, school attorneys, school nurses*. New York, NY: Authors Choice Press.
- Schwartz, L. A., Mao, J. J., DeRosa, B. W., Ginsberg, J. P., Hobbie, W. L., Carlson, C. A., . . . Kazak, A. E. (2010). Self-reported health problems of young adults in clinical settings: Survivors of childhood cancer and healthy controls. *Journal of the American Board of Family Medicine*, 23, 306-314. doi:10.3122/jabfm.2010.03.090215
- Seidman, I. E. (2006). *Interviewing as qualitative research: A guide for researchers in education and the social sciences* (3rd ed.). New York, NY: Teachers College Press.
- Simões, M. R. (1994). *Investigações no âmbito da Aferição Nacional do Teste das Matrizes Progressivas Coloridas de Raven (M.P.C.R) [Investigations in the context of the national standardization of the Raven Coloured Progressive Matrices test (RCPM)]* (Unpublished doctoral dissertation), University of Coimbra, Coimbra, Portugal.

- Sloper, P. (2000). Predictors of distress in parents of children with cancer: A prospective study. *Journal of Pediatric Psychology, 25*, 79-91. doi:10.1093/jpepsy/25.2.79
- Sloper, T., Larcombe, I. J., & Charlton, A. (1994). Psychosocial adjustment of five-year survivors of childhood cancer. *Journal of Cancer Education, 9*, 163-169. doi:10.1080/08858199409528300
- Snyder, C. R., Harris, C., Anderson, J. R., Holleran, S. A., Irving, L. M., Sigmon, S. T., . . . Harney, P. (1991). The will and the ways: Development and validation of an individual-differences measure of hope. *Journal of Personality and Social Psychology, 60*, 570-585. doi:10.1037/0022-3514.60.4.570
- Snyder, C. R., Hoza, B., Pelham, W. E., Rapoff, M., Ware, L., Danovsky, M., . . . Stahl, K. J. (1997). The development and validation of the Children's Hope Scale. *Journal of Pediatric Psychology, 22*, 399-421. doi:10.1093/jpepsy/22.3.399
- Snyder, C. R., Irving, L., & Anderson, J. R. (1991). Hope and health: Measuring the will and the ways. In C.R. Snyder & D. R. Forsyth (Eds.), *Handbook of social and clinical psychology: The health perspective* (pp. 285-305). Elmsford, NY: Pergamon Press
- Speechley, K. N., Barrera, M., Shaw, A. K., Morrison, H. I., & Maunsell, E. (2006). Health-related quality of life among child and adolescent survivors of childhood cancer. *Journal of Clinical Oncology, 24*, 2536-2543. doi:10.1200/jco.2005.03.9628
- Spinetta, J. J., & Maser, G. (2006). A prospective and retrospective view of pediatric hematology/oncology. In R. T. Brown (Ed.), *Comprehensive handbook of childhood cancer and sickle cell disease: A biopsychosocial approach* (pp. 559-574). New York, NY: Oxford University Press.
- Stein, R. E., & Riessman, C. K. (1980). The development of an Impact on Family Scale: Preliminary findings. *Medical Care, 18*, 465-472. doi:10.1097/00005650-198004000-00010
- Steinglass, P. (1998). Multiple family discussion groups for patients with chronic medical illness. *Families, Systems, & Health, 16*, 55-70. doi:10.1037/h0089842
- Steliarova-Foucher, E., & Frazier, A. L. (2014). Childhood cancer. In B. W. Stewart & C. P. Wild (Eds.), *World cancer report 2014* (pp. 69-76). Lyon Cedex, France: International Agency for Research on Cancer.
- Steliarova-Foucher, E., Stiller, C., Lacour, B., & Kaatsch, P. (2005). International classification of childhood cancer, third edition. *Cancer, 103*, 1457-1467. doi:10.1002/cncr.20910
- Stern, P. N. (1980). Grounded theory methodology: Its uses and processes. *Journal of Nursing Scholarship, 12*, 20-23. doi:10.1111/j.1547-5069.1980.tb01455.x
- Stiller, C. A. (2008). Epidemiology of childhood tumors. In R. Carachi, J. L. Grosfeld, & A. F. Azmy (Eds.), *The surgery of childhood tumors* (2nd ed., pp. 3-15). Berlin, Heidelberg: Springer-Verlag.

- Strauss, A., & Corbin, J. M. (1998). *Basics of qualitative research: Techniques and procedures for developing Grounded Theory* (2nd ed.). Thousand Oaks, CA: SAGE Publications.
- Sultan, S., Leclair, T., Rondeau, É, Burns, W., & Abate, C. (2016). A systematic review on factors and consequences of parental distress as related to childhood cancer. *European Journal of Cancer Care*, *25*, 616-637. doi:10.1111/ecc.12361
- Sung, L., Klaassen, R. J., Dix, D., Pritchard, S., Yanofsky, R., Dzolganovski, B., . . . Klassen, A. (2009). Identification of paediatric cancer patients with poor quality of life. *British Journal of Cancer*, *100*, 82-88. doi:10.1038/sj.bjc.6604826
- Thompson, A. L., Gerhardt, C. A., Miller, K. S., Vannatta, K., & Noll, R. B. (2009). Survivors of childhood cancer and comparison peers: The influence of peer factors on later externalizing behavior in emerging adulthood. *Journal of Pediatric Psychology*, *34*, 1119-1128. doi:10.1093/jpepsy/jsp019
- Thompson, R. J., Jr., & Gustafson, K. E. (1996). *Adaptation to chronic childhood illness*. Washington, DC: APA.
- Thompson, R. J., Jr., Gil, K. M., Gustafson, K. E., George, L. K., Keith, B. R., Spock, A., & Kinney, T. R. (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
- Trask, P. C., Paterson, A. G., Trask, C. L., Bares, C. B., Birt, J., & Maan, C. (2003). Parent and adolescent adjustment to pediatric cancer: Associations with coping, social support, and family function. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*, *20*, 36-47. doi:10.1053/jpon.2003.5
- Tsuji, N., Kakee, N., Ishida, Y., Asami, K., Tabuchi, K., Nakadate, H., . . . Matsushima, E. (2011). Validation of the Japanese version of the Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL) cancer module. *Health and Quality of Life Outcomes*, *9*, 22. doi:10.1186/1477-7525-9-22
- Upton, P., Eiser, C., Cheung, I., Hutchings, H. A., Jenney, M., Maddocks, A., . . . Williams, J. G. (2005). Measurement properties of the UK-English version of the Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 (PedsQL) generic core scales. *Health and Quality of Life Outcomes*, *3*, 22. doi:10.1186/1477-7525-3-22
- van der Hart, O., Witztum, E., & de Voogt, A. (1989). Myths and Rituals. *Journal of Psychotherapy and The Family*, *4*, 57-80. doi:10.1300/J287v04n03_05
- Van Schoors, M., Caes, L., Verhofstadt, L. L., Goubert, L., & Alderfer, M. A. (2015). Systematic review: Family resilience after pediatric cancer diagnosis. *Journal of Pediatric Psychology*, *40*, 856-868. doi:10.1093/jpepsy/jsv055
- Varni, J. W., Burwinkle, T. M., Katz, E. R., Meeske, K., & Dickinson, P. (2002). The PedsQL™ in pediatric cancer reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory™

- Generic Core Scales, Multidimensional Fatigue Scale, and Cancer Module. *Cancer*, 94, 2090-2106. doi:10.1002/cncr.10428
- Varni, J. W., Katz, E. R., Colegrove, R., & Dolgin, M. (1996). Family functioning predictors of adjustment in children with newly diagnosed cancer: A prospective analysis. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 37, 321-328. doi:10.1111/j.1469-7610.1996.tb01409.x
- Varni, J. W., Limbers, C., & Burwinkle, T. M. (2007). Literature review: Health-related quality of life measurement in pediatric oncology: Hearing the voices of the children. *Journal of Pediatric Psychology*, 32, 1151-1163. doi:10.1093/jpepsy/jsm008
- Varni, J. W., Seid, M., & Rode, C. A. (1999). The PedsQL™: Measurement model for the Pediatric Quality of Life Inventory. *Medical Care*, 37, 126-139. doi:10.1097/00005650-199902000-00003
- Vassal, G., Schrappe, M., Pritchard-Jones, K., Arnold, F., Basset, L., Biondi, A., . . . Ladenstein, R. (2016). The SIOPE strategic plan: A European cancer plan for children and adolescents. *Journal of Cancer Policy*, 8, 17-32. doi:10.1016/j.jcpo.2016.03.007
- 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.
- von Bertalanffy, L. (1973). *General system theory: Foundations, development, applications*. New York, NY: George Braziller, Inc.
- von Essen, L., Enskar, K., Kreuger, A., Larsson, B., & Sjoden, P. O. (2000). Self-esteem, depression and anxiety among Swedish children and adolescents on and off cancer treatment. *Acta Paediatrica*, 89, 229-236. doi:10.1111/j.1651-2227.2000.tb01221.x
- Vrijmoet-Wiersma, C. M. J., van Klink, J. M. M., Kolk, A. M., Koopman, H. M., Ball, L. M., & Maarten Egeler, R. M. (2008). Assessment of parental psychological stress in pediatric cancer: A review. *Journal of Pediatric Psychology*, 33, 694-706. doi:10.1093/jpepsy/jsn007
- Wakefield, C. E., McLoone, J. K., Butow, P., Lenthen, K., & Cohn, R. J. (2011). Parental adjustment to the completion of their child's cancer treatment. *Pediatric Blood and Cancer*, 56, 524-531. doi:10.1002/pbc.22725
- Wallander, J. L., Schmitt, M., & Koot, H. M. (2001). Quality of life measurement in children and adolescents: Issues, instruments, and applications. *Journal of Clinical Psychology*, 57, 571-585. doi:10.1002/jclp.1029
- Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., Banis, H. T., & Wilcox, K. T. (1989). Family resources as resistance factors for psychological maladjustment in chronically ill and handicapped children. *Journal of Pediatric Psychology*, 14, 157-173. doi:10.1093/jpepsy/14.2.157

- Wallander, J. L., Varni, J. W., Babani, L., DeHaan, C. B., Wilcox, K. T., & Banis, H. T. (1989). The social environment and the adaptation of mothers of physically handicapped children. *Journal of Pediatric Psychology, 14*, 371-387. doi:10.1093/jpepsy/14.3.371
- Ward, E., DeSantis, C., Robbins, A., Kohler, B., & Jemal, A. (2014). Childhood and adolescent cancer statistics, 2014. *CA: A Cancer Journal for Clinicians, 64*, 83-103. doi:10.3322/caac.21219
- Warner, E. L., Kirchhoff, A. C., Nam, G. E., & Fluchel, M. (2015). Financial burden of pediatric cancer for patients and their families. *Journal of Oncology Practice, 11*, 12-18. doi:10.1200/jop.2014.001495
- Wechsler, A. M., & Sanchez-Iglesias, I. (2013). Psychological adjustment of children with cancer as compared with healthy children: A meta-analysis. *European Journal of Cancer Care, 22*, 314-325. doi:10.1111/ecc.12031
- Werba, B. E., & Kazak, A. E. (2009). Commentary: Life threat, risk, and resilience in pediatric medical traumatic stress. *Journal of Pediatric Psychology, 34*, 27-29. doi:10.1093/jpepsy/jsn050
- Werba, B. E., Hobbie, W., Kazak, A. E., Ittenbach, R. F., Reilly, A. F., & Meadows, A. T. (2007). Classifying the intensity of pediatric cancer treatment protocols: The Intensity of Treatment Rating Scale 2.0 (ITR-2). *Pediatric Blood and Cancer, 48*, 673-677. doi:10.1002/pbc.21184
- White, R. W. (1974). Strategies of adaptation. An attempt at systematic description. In G. V. Coelho, D. A. Hamburg, & J. E. Adams (Eds.), *Coping and adaptation* (pp. 47-68). New York, NY: Basic Books.
- WHOQOL Group. (1994). Development of the WHOQOL: Rationale and current status. *International Journal of Mental Health, 23*, 24-56.
- WHOQOL Group. (1998). The World Health Organization quality of life assessment (WHOQOL): Development and general psychometric properties. *Social Science and Medicine, 46*, 1569-1585. doi:10.1016/S0277-9536(98)00009-4
- Wiebe, S., Guyatt, G., Weaver, B., Matijevic, S., & Sidwell, C. (2003). Comparative responsiveness of generic and specific quality-of-life instruments. *Journal of Clinical Epidemiology, 56*, 52-60. doi:10.1016/S0895-4356(02)00537-1
- Wiener, L., Kazak, A. E., Noll, R. B., Patenaude, A. F., & Kupst, M. J. (2015). Standards for psychosocial care of children with cancer and their families: An introduction to the special issue. *Pediatric Blood and Cancer, 62*, S419-S424. doi:10.1002/pbc.25675
- Witt, W. P., Litzelman, K., Wisk, L. E., Spear, H. A., Catrine, K., Levin, N., & Gottlieb, C. A. (2010). Stress-mediated quality of life outcomes in parents of childhood cancer and brain tumor survivors: A case-control study. *Quality of Life Research, 19*, 995-1005. doi:10.1007/s11136-010-9666-9

- Wolin, S. J., & Bennett, L. A. (1984). Family rituals. *Family Process*, 23, 401-420. doi:10.1111/j.1545-5300.1984.00401.x
- World Health Organization. (2015). *Cancer* [Fact sheet N° 297]. Retrieved from <http://www.who.int/mediacentre/factsheets/fs297/en/>
- World Health Organization. (2016). *Health Topics: Depression*. Retrieved from <http://www.who.int/topics/depression/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
- Wu, Y. P., Thompson, D., Aroian, K. J., McQuaid, E. L., & Deatrck, J. A. (2016). Commentary: Writing and evaluating qualitative research reports. *Journal of Pediatric Psychology*, 41, 493-505. doi:10.1093/jpepsy/jsw032
- Yin, R. K. (2015). *Qualitative research from start to finish* (2nd ed.). New York, NY: Guilford Press.
- Yoon, Y., Newkirk, K., & Perry-Jenkins, M. (2015). Parenting stress, dinnertime rituals, and child well-being in working-class families. *Family Relations*, 64, 93-107. doi:10.1111/fare.12107
- Young, B., Dixon-Woods, M., Findlay, M., & Heney, D. (2002). Parenting in a crisis: Conceptualising mothers of children with cancer. *Social Science and Medicine*, 55, 1835-1847. doi:10.1016/S0277-9536(01)00318-5
- Zigmond, A. S., & Snaith, R. P. (1983). The Hospital Anxiety and Depression Scale. *Acta Psychiatrica Scandinavica*, 67, 361-370. doi:10.1111/j.1600-0447.1983.tb09716.x

Anexos

Anexo A | Parecer das Comissões de Ética

A1. Instituto Português de Oncologia do Porto Francisco Gentil, Entidade Pública Empresarial [IPOPFG, EPE]

From: [Arminda Pinto](mailto:Arminda.Pinto)

Sent: Tuesday, May 08, 2012 12:59 PM

To: mccanavarro@fpce.uc.pt

Subject: Autorização p/ desenvolvimento de Projecto de Investigação

Exma. Senhora
Prof. Doutora Maria Cristina Canavarro
Coordenadora de Projecto de Investigação
Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da
Universidade do Coimbra
COIMBRA

Porto 2012/05/08

Face ao pedido solicitado, no ofício de 27 de Fevereiro último, para desenvolvimento do Projecto de Investigação intitulado “Factores familiares e adaptação no cancro pediátrico: Um estudo com crianças/adolescentes e seus cuidadores familiares”, informamos que o mesmo teve parecer favorável da Comissão de Ética para a Saúde e do Director do Serviço de Pediatria, pelo que se encontra devidamente autorizado.

Assim, deverá ser contactado o Serviço de Pediatria, Dr. Armando Pinto, no sentido de agendar a data de realização.

Com os melhores cumprimentos,

Prof. Doutor Rui Henrique
Director da Escola Portuguesa de Oncologia do Porto

A2. Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Entidade Pública Empresarial [HP, CHUC, EPE]

(Serviço: Oncologia Pediátrica Hospital Pediátrico de Coimbra Carmona da Mota - CHUC ---
Cargo: Directora de Serviço-----)

Declaração

Declara-se para os devidos efeitos que o Serviço de Oncologia Pediátrica – Hospital Pediátrico de Coimbra Carmona da Mota - CHUC, acolherá e proporcionará as condições institucionais necessárias à realização do projecto de investigação "Factores familiares e adaptação no cancro pediátrico: Um estudo com crianças/adolescentes e seus cuidadores familiares" com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra.

O projecto de investigação a ser desenvolvido afigura-se-nos com qualidade científica e interesse para esta Instituição, motivo pelo qual passo e assino esta declaração.

Coimbra, _17_ de _Maio_ de 2012

*Assino o parecer
Jornal de direcção de serviço*

O Director do Departamento e
Director Clínico Adjunto
Hospital Pediátrico de Coimbra



Prof. Doutor Jorge M. Saraiva
Med. N.º 741

21/5/12

Fátima Mendes / Directora Serviço

Assinatura / Cargo

A3. Centro Hospitalar de São João, Entidade Pública Empresarial [CHSJ, EPE]

234-12
A Direcção Clínica
8/1/13

CONSELHO DE ADMINISTRAÇÃO
8/1/13

Prof. Dr. António Ferreira

AUTORIZADO

CONSELHO DE ADMINISTRAÇÃO REUNIÃO DE 11 JAN 2013
Presidente do Conselho de Administração

AA

Direcção Clínica <i>L</i>	Presidente Direcção _____	Vogal Executivo <i>FB</i>	Vogal Executivo <i>F</i>
Estatística/Rec. Pediatr. (E. de Inv. e C. de Invest.)	E. de Inv. e C. de Invest.	E. de Inv. e C. de Invest.	E. de Inv. e C. de Invest.

Exmo. Senhor
Presidente do Conselho de Administração do
Centro Hospitalar de S. João – EPE
Prof. Doutor António Ferreira

Assunto: Pedido de autorização para realização de estudo/projecto de investigação

Nome do Investigador Principal: Susana Isabel Fernandes Santos

Título do projecto de investigação: Fatores familiares e adaptação no cancro pediátrico:

Um estudo com crianças/adolescentes e seus cuidadores familiares

Pretendendo realizar no(s) Serviço(s) de _____Pediatria_____ do Centro Hospitalar de S. João – EPE o estudo/projecto de investigação em epígrafe, solicito a V. Exa., na qualidade de Investigador/Promotor, autorização para a sua efectivação.

Para o efeito, anexa toda a documentação referida no dossier da Comissão de Ética do Centro Hospitalar de S. João respeitante a estudos/projectos de investigação, à qual endereçou pedido de apreciação e parecer.

Com os melhores cumprimentos.

Porto, 15 / Outubro / 2012

O INVESTIGADOR/PROMOTOR

Susana Isabel Fernandes Santos

Anexo B | Consentimentos informados

B1.1. Estudo qualitativo (pais de crianças ≤12 anos)

PROJETO DE INVESTIGAÇÃO
Fatores Familiares e Adaptação no Cancro Pediátrico:
Um Estudo com Crianças/Adolescentes e Seus Cuidadores Familiares

Informação ao participante:

Objetivo Geral: Esta investigação pretende compreender os fatores associados ao bem-estar de crianças e adolescentes com cancro e dos seus cuidadores familiares. Com este projeto pretende-se recolher informação que possa, futuramente, contribuir para uma melhoria da intervenção junto das famílias por parte dos profissionais de saúde e de instituições de apoio e acolhimento.

Instituição: Este é um projeto de investigação com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (FPCE-UC). A responsabilidade do tratamento dos dados é da exclusiva responsabilidade dos investigadores envolvidos.

Papel dos Participantes: A colaboração do(a) seu(sua) filho(a) neste projeto consiste no preenchimento de uma ficha de dados sociodemográficos e na participação numa entrevista que será gravada em registo áudio. Poderá ser solicitada a colaboração posterior do(a) seu(sua) filho(a) para responder a uma entrevista por uma segunda vez, passado aproximadamente um ano. Do mesmo modo, também lhe será solicitado que preencha uma ficha de dados sociodemográficos e que responda a duas entrevistas, de dimensão e conteúdo semelhantes à que o(a) seu(sua) filho(a) irá responder. No caso de um(a) menor se recusar a responder, não será obrigado(a) a fazê-lo, mesmo que o adulto tenha dado consentimento. Em qualquer momento e por qualquer motivo (inclusive se sentir a sua privacidade ou a do(a) seu(sua) filho(a) invadida) podem negar-se a responder a uma qualquer pergunta (sem terem de se justificar) e/ou podem desistir de colaborar neste projeto sem que por isso sejam prejudicados no atendimento clínico que vos é disponibilizado.

Risco de participação no estudo: Não existem riscos associados ao preenchimento dos questionários para este estudo.

Benefícios de participação no estudo: Não irá receber nenhum benefício imediato por participar neste estudo. No entanto, a informação recolhida no estudo beneficiará no futuro pessoas crianças/adolescentes com cancro e respetivos cuidadores familiares.

Papel dos Investigadores: Os investigadores deste projeto comprometem-se a: garantir total confidencialidade sobre os dados que forem fornecidos pelos participantes; utilizar os dados fornecidos pelos participantes somente para fins de investigação (os resultados têm unicamente valor coletivo); destruir as fitas gravadas depois de cumprida a sua finalidade.

Consentimento Informado:

Eu, _____, declaro ter consciência dos objetivos e procedimentos do presente projeto, bem como do meu papel e do meu filho, _____, enquanto participantes neste estudo; não ter participado em nenhum outro projeto de investigação durante este internamento ou consulta. _____, ____ de _____ de 20__.

Assinatura do Encarregado de Educação: _____

Nome do entrevistador: _____

Se tiver alguma questão ou preocupação sobre os seus direitos como participante, pode contactar:

Responsável pelo projeto: Dr.ª Susana Santos (susanasantos@fpce.uc.pt)

Coordenadoras do projeto: Professora Doutora Carla Crespo (carlacrespo@fpce.uc.pt); Professora Doutora Maria Cristina Canavarro (mccanavarro@fpce.uc.pt)

(Depois de assinada pelo participante e investigador, esta folha deverá ser fotocopiada e entregue ao participante do estudo)

B1.2. Estudo qualitativo (pais de crianças ≥13 anos)

PROJETO DE INVESTIGAÇÃO
Fatores Familiares e Adaptação no Cancro Pediátrico:
Um Estudo com Crianças/Adolescentes e Seus Cuidadores Familiares

Informação ao participante:

Objetivo Geral: Esta investigação pretende compreender os fatores associados ao bem-estar de crianças e adolescentes com cancro e dos seus cuidadores familiares. Com este projeto pretende-se recolher informação que possa, futuramente, contribuir para uma melhoria da intervenção junto das famílias por parte dos profissionais de saúde e de instituições de apoio e acolhimento.

Instituição: Este é um projeto de investigação com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (FPCE-UC). A responsabilidade do tratamento dos dados é da exclusiva responsabilidade dos investigadores envolvidos.

Papel dos Participantes: A sua colaboração neste projeto consiste no preenchimento de uma ficha de dados sociodemográficos e na participação numa entrevista que será gravada em registo áudio. Poderá ser solicitada a sua colaboração posterior para responder a uma entrevista por uma segunda vez, passado aproximadamente um ano. Do mesmo modo, também será solicitado ao(à) seu(sua) filho(a) que preencha uma ficha de dados sociodemográficos e que responda a duas entrevistas, de dimensão e conteúdo semelhantes à sua. Em qualquer momento e por qualquer motivo (inclusive se sentir a sua privacidade invadida) pode negar-se a responder a uma qualquer pergunta (sem ter de te justificar) e/ou pode desistir de colaborar neste projeto sem que por isso sejam prejudicados no atendimento clínico que vos é disponibilizado.

Risco de participação no estudo: Não existem riscos associados ao preenchimento dos questionários para este estudo.

Benefícios de participação no estudo: Não irá receber nenhum benefício imediato por participar neste estudo. No entanto, a informação recolhida no estudo beneficiará no futuro pessoas crianças/adolescentes com cancro e respetivos cuidadores familiares.

Papel dos Investigadores: Os investigadores deste projeto comprometem-se a: garantir total confidencialidade sobre os dados que forem fornecidos pelos participantes; utilizar os dados fornecidos pelos participantes somente para fins de investigação (os resultados têm unicamente valor coletivo); destruir as fitas gravadas depois de cumprida a sua finalidade.

Consentimento Informado:

Eu, _____, declaro ter consciência dos objetivos e procedimentos do presente projeto, bem como do meu papel enquanto participante neste estudo; não ter participado em nenhum outro projeto de investigação durante este internamento ou consulta.

_____, ____ de _____ de 20__.

Assinatura: _____

Nome do entrevistador: _____

Se tiver alguma questão ou preocupação sobre os seus direitos como participante, pode contactar:

Responsável pelo projeto: Dr.ª Susana Santos (susanasantos@fpce.uc.pt)

Coordenadoras do projeto: Professora Doutora Carla Crespo (carlacrespo@fpce.uc.pt); Professora Doutora Maria Cristina Canavarro (mccanavarro@fpce.uc.pt)
(Depois de assinada pelo participante e investigador, esta folha deverá ser fotocopiada e entregue ao participante do estudo)

B2.1. Estudo quantitativo (pais de crianças \geq 13 anos)

PROJETO DE INVESTIGAÇÃO
Fatores Familiares e Adaptação no Cancro Pediátrico:
Um Estudo com Crianças/Adolescentes e Seus Cuidadores Familiares

Informação ao participante:

Objetivo Geral: Esta investigação pretende compreender os fatores associados ao bem-estar de crianças e adolescentes com cancro e dos seus cuidadores familiares. Com este projeto pretende-se recolher informação que possa, futuramente, contribuir para uma melhoria da intervenção junto das famílias por parte dos profissionais de saúde e de instituições de apoio e acolhimento.

Instituição: Este é um projeto de investigação com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (FPCE-UC). A responsabilidade do tratamento dos dados é da exclusiva responsabilidade dos investigadores envolvidos.

Papel dos Participantes: A sua colaboração neste projeto consiste no preenchimento de questionários de autorresposta. Do mesmo modo, também será solicitado ao(à) seu(sua) filho(a) que responda a um conjunto de questionários, de dimensão e conteúdo semelhantes aos seus. Todos os questionários e fichas de dados serão identificados por um código e os dados serão tratados apenas coletivamente, de forma a garantir, em todos os momentos, o anonimato dos participantes. Em qualquer momento e por qualquer motivo (inclusive se sentir a sua privacidade invadida) pode negar-se a responder a uma qualquer pergunta (sem ter de se justificar) e/ou pode desistir de colaborar neste projeto sem que por isso sejam prejudicados no atendimento clínico que vos é disponibilizado.

Risco de participação no estudo: Não existem riscos associados ao preenchimento dos questionários para este estudo.

Benefícios de participação no estudo: Não irá receber nenhum benefício imediato por participar neste estudo. No entanto, a informação recolhida no estudo beneficiará no futuro pessoas crianças/adolescentes com cancro e respetivos cuidadores familiares.

Papel dos Investigadores: Os investigadores deste projeto comprometem-se a: garantir total confidencialidade sobre os dados que forem fornecidos pelos participantes; utilizar os dados fornecidos pelos participantes somente para fins de investigação (os resultados têm unicamente valor coletivo).

Consentimento Informado:

Eu, _____, declaro ter consciência dos objetivos e procedimentos do presente projeto, bem como do meu papel enquanto participante neste estudo; não ter participado em nenhum outro projeto de investigação durante este internamento ou consulta.

_____, ____ de _____ de 20__.

Assinatura: _____

Nome do entrevistador: _____

Se tiver alguma questão ou preocupação sobre os seus direitos como participante, pode contactar:

Responsável pelo projeto: Dr.ª Susana Santos (susanasantos@fpce.uc.pt)

Coordenadoras do projeto: Professora Doutora Carla Crespo (carlacrespo@fpce.uc.pt); Professora Doutora Maria Cristina Canavarro (mccanavarro@fpce.uc.pt)

(Depois de assinada pelo participante e investigador, esta folha deverá ser fotocopiada e entregue ao participante do estudo)

B2.2. Estudo quantitativo (pais de crianças ≤ 12 anos)

PROJETO DE INVESTIGAÇÃO
Fatores Familiares e Adaptação no Cancro Pediátrico:
Um Estudo com Crianças/Adolescentes e Seus Cuidadores Familiares

Informação ao participante:

Objetivo Geral: Esta investigação pretende compreender os fatores associados ao bem-estar de crianças e adolescentes com cancro e dos seus cuidadores familiares. Com este projeto pretende-se recolher informação que possa, futuramente, contribuir para uma melhoria da intervenção junto das famílias por parte dos profissionais de saúde e de instituições de apoio e acolhimento.

Instituição: Este é um projeto de investigação com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (FPCE-UC). A responsabilidade do tratamento dos dados é da exclusiva responsabilidade dos investigadores envolvidos.

Papel dos Participantes: A colaboração do(a) seu(sua) filho(a) neste projeto consiste no preenchimento de questionários de autorresposta. Do mesmo modo, também lhe será solicitado que preencha um conjunto de questionários de autorresposta, de dimensão e conteúdo semelhantes à que o(a) seu(sua) filho(a) irá responder. No caso de um(a) menor se recusar a responder, não será obrigado(a) a fazê-lo, mesmo que o adulto tenha dado consentimento. Todos os questionários e fichas de dados serão identificados por um código e os dados serão tratados apenas coletivamente, de forma a garantir, em todos os momentos, o anonimato dos participantes. Em qualquer momento e por qualquer motivo (inclusive se sentir a sua privacidade ou a do(a) seu(sua) filho(a) invadida) podem negar-se a responder a uma qualquer pergunta (sem terem de se justificar) e/ou podem desistir de colaborar neste projeto sem que por isso sejam prejudicados no atendimento clínico que vos é disponibilizado.

Risco de participação no estudo: Não existem riscos associados ao preenchimento dos questionários para este estudo.

Benefícios de participação no estudo: Não irá receber nenhum benefício imediato por participar neste estudo. No entanto, a informação recolhida no estudo beneficiará no futuro pessoas crianças/adolescentes com cancro e respetivos cuidadores familiares.

Papel dos Investigadores: Os investigadores deste projeto comprometem-se a: garantir total confidencialidade sobre os dados que forem fornecidos pelos participantes; utilizar os dados fornecidos pelos participantes somente para fins de investigação (os resultados têm unicamente valor coletivo).

Consentimento Informado:

Eu, _____, declaro ter consciência dos objetivos e procedimentos do presente projeto, bem como do meu papel e do meu filho, _____, enquanto participantes neste estudo; não ter participado em nenhum outro projeto de investigação durante este internamento ou consulta. _____, ____ de _____ de 20__.

Assinatura do Encarregado de Educação: _____

Nome do entrevistador: _____

Se tiver alguma questão ou preocupação sobre os seus direitos como participante, pode contactar:

Responsável pelo projeto: Dr.ª Susana Santos (susanasantos@fpce.uc.pt)

Coordenadoras do projeto: Professora Doutora Carla Crespo (carlacrespo@fpce.uc.pt); Professora Doutora Maria Cristina Canavarro (mccanavarro@fpce.uc.pt)

(Depois de assinada pelo participante e investigador, esta folha deverá ser fotocopiada e entregue ao participante do estudo)

B2.3. Estudo quantitativo (crianças ≥ 13 anos)

PROJETO DE INVESTIGAÇÃO
Fatores Familiares e Adaptação no Cancro Pediátrico:
Um Estudo com Crianças/Adolescentes e Seus Cuidadores Familiares

Informação ao participante:

Objetivo Geral: Esta investigação pretende compreender os fatores associados ao bem-estar de crianças e adolescentes com cancro e dos seus cuidadores familiares. Com este projeto pretende-se recolher informação que possa, futuramente, contribuir para uma melhoria da intervenção junto das famílias por parte dos profissionais de saúde e de instituições de apoio e acolhimento.

Instituição: Este é um projeto de investigação com sede na Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação da Universidade de Coimbra (FPCE-UC). A responsabilidade do tratamento dos dados é da exclusiva responsabilidade dos investigadores envolvidos.

Papel dos Participantes: A tua colaboração neste projeto consiste no preenchimento de questionários de autorresposta. Todos os questionários serão identificados por um código e os dados serão tratados apenas coletivamente, de forma a garantir, em todos os momentos, o anonimato dos participantes. **Em qualquer momento e por qualquer motivo** (inclusive se sentires a tua privacidade invadida) **podes negar-te a responder a uma qualquer pergunta** (sem teres de te justificar) e/ou **podes desistir de colaborar neste projeto** sem que por isso sejas prejudicado no atendimento clínico que te é disponibilizado.

Risco de participação no estudo: Não existem riscos associados ao preenchimento dos questionários para este estudo.

Benefícios de participação no estudo: Não irá receber nenhum benefício imediato por participar neste estudo. No entanto, a informação recolhida no estudo beneficiará no futuro pessoas crianças/adolescentes com cancro e respetivos cuidadores familiares.

Papel dos Investigadores: Os investigadores deste projeto comprometem-se a: garantir total confidencialidade sobre os dados que forem fornecidos pelos participantes; utilizar os dados fornecidos pelos participantes somente para fins de investigação (os resultados têm unicamente valor coletivo).

Consentimento Informado:

Eu, _____, declaro ter consciência dos objetivos e procedimentos do presente projeto, bem como do meu papel enquanto participante neste estudo; não ter participado em nenhum outro projeto de investigação durante este internamento ou consulta.

_____, ____ de _____ de 20 ____.

Assinatura: _____

Nome do entrevistador: _____

Se tiver alguma questão ou preocupação sobre os seus direitos como participante, pode contactar:

Responsável pelo projeto: Dr.ª Susana Santos (susanasantos@fpce.uc.pt)

Coordenadoras do projeto: Professora Doutora Carla Crespo (carlacrespo@fpce.uc.pt); Professora Doutora Maria Cristina Canavarro (mccanavarro@fpce.uc.pt)

(Depois de assinada pelo participante e investigador, esta folha deverá ser fotocopiada e entregue ao participante do estudo)

Anexo C | Ficha de dados sociodemográficos e clínicos

Ficha de Dados Sócio-Demográficos e Clínicos

DADOS PESSOAIS

1. Idade: _____anos;	4. Situação Profissional: <input type="checkbox"/> Empregado/Ativo <input type="checkbox"/> Desempregado <input type="checkbox"/> Baixa <input type="checkbox"/> Reforma <input type="checkbox"/> Outra _____	5. Escolaridade: <input type="checkbox"/> Não sabe ler/nem escrever <input type="checkbox"/> Sabe ler e/ou escrever <input type="checkbox"/> 1º-4º anos <input type="checkbox"/> 5º-6º anos <input type="checkbox"/> 7º-9º anos <input type="checkbox"/> 10º-12º anos <input type="checkbox"/> Licenciatura <input type="checkbox"/> Formação pós-graduada	6. Estado civil: <input type="checkbox"/> Solteiro(a) <input type="checkbox"/> Casado(a) <input type="checkbox"/> União de facto <input type="checkbox"/> Separado(a) <input type="checkbox"/> Divorciado(a) <input type="checkbox"/> Viúvo(a)
2. Sexo: <input type="checkbox"/> Masculino <input type="checkbox"/> Feminino;			
3. Profissão: _____			
7. Já recorreu, no passado, a serviços de psiquiatria/saúde mental por causa de problemas psicológicos/emocionais? <input type="checkbox"/> Não <input type="checkbox"/> Sim			
8. Recorre, no presente, a serviços de psiquiatria/saúde mental por causa de problemas psicológicos/emocionais? <input type="checkbox"/> Não <input type="checkbox"/> Sim			

DADOS DO CÔNJUGE/COMPANHEIRO(A)

9. Idade: _____anos;	11. Escolaridade: <input type="checkbox"/> Não sabe ler/nem escrever <input type="checkbox"/> Sabe ler e/ou escrever <input type="checkbox"/> 1º-4º anos <input type="checkbox"/> 5º-6º anos <input type="checkbox"/> 7º-9º anos <input type="checkbox"/> 10º-12º anos <input type="checkbox"/> Licenciatura <input type="checkbox"/> Formação pós-graduada	12. Profissão: _____
10. Sexo: <input type="checkbox"/> Masculino <input type="checkbox"/> Feminino;		13. Situação Profissional: <input type="checkbox"/> Empregado/Ativo <input type="checkbox"/> Desempregado <input type="checkbox"/> Baixa <input type="checkbox"/> Reforma <input type="checkbox"/> Outra _____

DADOS DO AGREGADO FAMILIAR

14. Quem vive no agregado familiar? _____	16. Tipologia familiar (a preencher pelo investigador) _____	17. Onde reside? _____
15. Religião/Crença religiosa? _____		18. É uma zona: <input type="checkbox"/> Rural <input type="checkbox"/> Semiurbana <input type="checkbox"/> Urbana

DADOS RELATIVOS AO(À) SEU(SUA) FILHO(A)

19. Idade: _____anos;	23. Problema de saúde/ diagnóstico do(a) seu(sua) filho(a)? _____ _____	28. Que tipo de tratamentos já fez até ao momento? <input type="checkbox"/> Quimioterapia <input type="checkbox"/> Transplante <input type="checkbox"/> Radioterapia <input type="checkbox"/> Outro _____ <input type="checkbox"/> Cirurgia _____																				
20. Sexo: <input type="checkbox"/> Masculino <input type="checkbox"/> Feminino;	24. Há quanto tempo foi o diagnóstico? _____(Meses)	29. Situação Atual <input type="checkbox"/> Hospitalizado <input type="checkbox"/> Ambulatório																				
21. Ano de escolaridade: _____	25. Recaída <input type="checkbox"/> Não <input type="checkbox"/> Sim 26.__(Nº)	30. Nº de internamentos até à data? _____																				
22. O seu filho encontra-se a receber apoio psicológico? <input type="checkbox"/> Não <input type="checkbox"/> Sim	27. O seu filho(a) encontra-se a fazer tratamentos: <input type="checkbox"/> Não <input type="checkbox"/> Sim	31. Nº de dias (no total)? _____																				
32. Numa escala de 1 a 10, até que ponto considera que o problema de saúde atual do(a) seu(sua) filho(a) é grave?		33. Numa escala de 1 a 10, até que ponto acha que o problema de saúde atual do(a) seu(sua) filho(a) interfere na vida dele(a)?																				
<table border="1"> <tr> <td>1</td><td>2</td><td>3</td><td>4</td><td>5</td><td>6</td><td>7</td><td>8</td><td>9</td><td>10</td> </tr> </table> <p>(1-nada grave; 10-muito grave)</p>		1	2	3	4	5	6	7	8	9	10	<table border="1"> <tr> <td>1</td><td>2</td><td>3</td><td>4</td><td>5</td><td>6</td><td>7</td><td>8</td><td>9</td><td>10</td> </tr> </table> <p>(1-nada incapacitante; 10-muito incapacitante)</p>	1	2	3	4	5	6	7	8	9	10
1	2	3	4	5	6	7	8	9	10													
1	2	3	4	5	6	7	8	9	10													

Anexo D | Guião da entrevista

	Temas-chave	Exemplos de questões
Família	I. Definição/avaliação	1. Gostaria de pedir que escolhesse 3 palavras para caracterizar a sua família. 2. Gostaria de pedir que escolhesse 1 símbolo para caracterizar a sua família.
Rituais Familiares	I. Identificação dos rituais familiares	1. Que rituais familiares consegue identificar na sua família? 1.1. Estes eventos fazem sentido para si? E para a sua família?
	II. Significado dos rituais familiares	1. Que significado têm os rituais familiares para si? E para a sua família?
	III. Historicidade dos rituais familiares	1. Depois do diagnóstico houve alterações na vivência dos rituais familiares? 1.1. O contexto hospitalar trouxe alguma coisa de novo para a vivência dos rituais familiares? 1.1.1. Se sim, o que é que mudou? 1.1.2. Se não, como é que os mantêm no contexto hospitalar? Que estratégias usam? Como é quando há internamentos?
Vivência do cancro pediátrico	I. Avaliação do impacto do cancro pediátrico	1. No momento em que soube da doença do(a) seu(sua) filho(a) como reagiu? Como é que foi para a sua família? 2. Como é passar o tempo em família depois do diagnóstico? O que é que fazem? Que momentos especiais identifica? 2.1. Houve alguma mudança em termos da organização da vida familiar? 2.2. Houve algo que tenha ajudado?
	II. Perceção sobre a adesão ao tratamento	1. Como é que responde às exigências do tratamento? E a sua família? 2. Há algo que seja mais difícil?
	III. Perceção sobre a relação entre os rituais familiares e a adesão ao tratamento	1. As exigências decorrentes do tratamento têm afetado a organização familiar? 2. O que é que a tem ajudado a cumprir com as exigências do tratamento? 3. O que é que tem ajudado a família a cumprir com as exigências do tratamento?