



ugr | Universidad
de Granada



Universidad
Zaragoza

Cambios producidos por una herramienta digital en la calidad de vida percibida por padres/cuidadores de pacientes tratados con hormona de crecimiento y relación con su crecimiento

Amalia María García Durán

Médica Interna Residente de Pediatría, Hospital Universitario Miguel Servet

**Máster en Condicionantes Genéticos, Nutricionales y Ambientales del
Crecimiento y Desarrollo**

(NUTRENVIGEN G+D Factors)

Tutores:

- Dr. Antonio de Arriba Muñoz
- Dr. Jose Ignacio Labarta Aizpún

Título: Cambios producidos por una herramienta digital en la calidad de vida percibida por padres/cuidadores de pacientes tratados con hormona de crecimiento y relación con su crecimiento

Title: Changes produced by a digital tool in parent´s perception of quality of life of children with growth hormone treatment in relation with their growth.

Autora: Amalia María García Durán (DNI 73423836-Q).

Tutor Académico: Antonio de Arriba Muñoz (DNI 04210627-V).

Línea de investigación en la que se enmarca el trabajo: Crecimiento y desarrollo.

Centro en el que se ha realizado el trabajo: Hospital Universitario Miguel Servet (Zaragoza).

Los tutores del trabajo, Antonio de Arriba Muñoz y José Ignacio Labarta Aizpún, dan el visto bueno a este trabajo que se ha desarrollado durante el curso académico 2021-2022.

Fdo: Amalia María García Durán

INDICE

1. INTRODUCCIÓN:	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
2. JUSTIFICACIÓN	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
3. OBJETIVOS	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
3.1. OBJETIVO GENERAL	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
3.2. OBJETIVOS ESPECÍFICOS	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
4. MATERIAL Y MÉTODOS.....	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
4.1. DISEÑO DEL ESTUDIO	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
4.2 ANÁLISIS ESTADÍSTICO	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
4.3 ASPECTOS ÉTICOS	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
5. RESULTADOS.....	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
5.1. ESTADÍSTICA DESCRIPTIVA	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
5.2. ESTADÍSTICA INFERENCIAL	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
6. DISCUSIÓN.....	29
7. LIMITACIONES Y FORTALEZAS.....	ERROR! BOOKMARK NOT DEFINED.
8. CONCLUSIONES	34
9. BIBLIOGRAFÍA.....	35
10. ANEXOS.....	39

RESUMEN

Introducción: el tratamiento con hormona de crecimiento recombinante humana (rhGH) en niños supone una carga para sus padres o cuidadores al ser los responsables de su administración.

Objetivos: evaluar si la calidad de vida percibida de los padres/cuidadores de niños tratados con rhGH influye en la adherencia y la respuesta al tratamiento y analizar si los cambios que se puedan producir en dicha calidad de vida percibida podría modificarlos.

Material y métodos: estudio mixto con parte prospectiva y retrospectiva. Muestra de 56 pacientes pediátricos tratados con rhGH con adherencia <85%. Variables: respuestas de los padres a encuestas de calidad de vida al inicio y tras el uso de una herramienta digital y datos antropométricos. Análisis estadístico descriptivo e inferencial (significación estadística: $p < 0.05$).

Resultados: los pacientes con mejor respuesta al tratamiento reportan una mejor calidad de vida en lo que respecta a la carga diaria del tratamiento y los efectos secundarios a la talla baja ($r=0,288$, $p=0,033$) y ($r=0,279$, $p=0,039$). Tras el uso de una herramienta digital, los que mejoran más su adherencia lo hacen a costa de empeorar su calidad de vida ($p=0,014$). Los padres de los niños de menor edad gestionan peor todo lo relacionado con el tratamiento ($r=0,316$, $p=0,018$) y aquellos que han crecido menos se muestran más afectados emocionalmente por tener una baja estatura ($r=-0,283$ y $p 0,034$). Tras el uso de la herramienta digital, mejora la adherencia, la percepción de la calidad de vida y la respuesta al tratamiento.

Conclusión: la percepción de la calidad de vida de los pacientes por parte de cuidadores mejora tras del uso de una herramienta digital que, a su vez, aumenta la adherencia y la respuesta al tratamiento.

PALABRAS CLAVE

- Talla baja
- Hormona de crecimiento
- Adherencia
- Calidad de vida
- Herramienta digital

ABSTRACT

Introduction: treatment with growth hormone (rhGH) is a burden on parents or caregivers as they are responsible for the administration.

Objectives: to evaluate the influence of parent's perception of quality of life of children treated with rhGH over the adherence and response to treatment. To analyse whether the changes that may occur in this perception could modify them.

Material and methods: mixed study with prospective and retrospective part. Sample of 56 paediatric patients with <85% adherence to treatment with rhGH. Variables: responses to quality of life surveys at baseline and after using a digital tool and anthropometric parameters. Descriptive and inferential statistical analysis (statistical significance: $p < 0.05$).

Results: patients with better response to treatment report a better quality of life regarding daily burden of the treatment and the secondary effect of short stature ($r=0,288$, $p=0,033$) y ($r=0,279$, $p=0,039$). After using a digital tool, those who improve the adherence to treatment, they do it at the expense of worsen their quality of life ($p=0,014$). Parents of younger children manage worse everything related to the treatment ($r=0,316$, $p=0,018$) and those who have grown less seem less emotionality affected by a short stature ($r=-0,283$ y $p 0,034$). After using a digital tool, improves the adherence to treatment, perception of quality of life and response to treatment.

Conclusion: after using a digital tool that improves the adherence and response to treatment, parent's perception of patient's quality of life gets better.

PALABRAS CLAVE

- Short stature
- Growth hormone
- Adherence
- Quality of life
- Digital tool

ABREVIATURAS

- CEICA: Comité de Ética de la investigación de la comunidad de Aragón
- cm: centímetros
- DE: desviaciones estándar
- DGH: déficit de hormona de crecimiento
- FDA: Administración de Alimentos y Medicamentos (Food and drug administration)
- GH: hormona de crecimiento
- g: gramos
- IGF-1: factor de crecimiento insulínico tipo 1
- IGFBP-3: proteína transportadora 3 del factor de crecimiento similar a la insulina
- IMC: índice de masa corporal
- Kg: kilogramos
- ml: mililitros
- mgr: miligramos
- mcg: microgramos
- m²: metros al cuadrado
- N: tamaño muestral
- ng: nanogramos
- p: percentil
- PEG: pequeño para la edad gestacional
- pg: picogramos
- rhGH: hormona de crecimiento recombinante
- VC: velocidad de crecimiento

1. INTRODUCCIÓN

El crecimiento es un fenómeno influenciado genéticamente y por una serie de condiciones ambientales, como la nutrición, el estado de salud, factores afectivos o el nivel socioeconómico. Además, tiene una base biológica, ya que se ve regulado por hormonas y factores locales de crecimiento y se lleva a cabo a través de órganos dianas, siendo el principal, el cartílago de crecimiento. Una de estas es la hormona de crecimiento (GH), que se sintetiza en las células somatotropas de la hipófisis anterior, donde se almacena y se libera de forma fásica, con un predominio nocturno, a la sangre. Desde allí se dirige al hígado, músculo esquelético, tejido adiposo y hueso. Posteriormente se introduce en las células, desencadenando la producción de IGF-1 (factor de crecimiento insulínico tipo 1), hormona que media la acción de GH de forma local y sistémica, transportándose a través del torrente sanguíneo en forma de IGFBP-3. Finalmente, se induce el crecimiento en los tejidos del organismo, para ello se favorece el depósito de proteínas en los tejidos y la utilización de grasa y de hidratos de carbono (1,2).

1.1 DEFINICIÓN DE TALLA BAJA

El hipocrecimiento o talla baja es uno de los motivos de consulta más frecuentes en Endocrinología Pediátrica. Se define como una talla <-2 desviaciones estándar (DE) para edad, sexo y etnia y velocidad de crecimiento (VC) durante un año o más <-1 DE para la edad cronológica; o talla normal, pero VC <-2 DE durante 1 año o más, o <-1 DE durante al menos 2 años; o talla baja armónica grave definida como <-3 DE para edad, sexo y etnia (1,2,3).

El diagnóstico del hipocrecimiento se basa en la anamnesis, incluyendo los antecedentes personales y los familiares, con los que se establecerá la talla genética, y la exploración física. Como pruebas complementarias se incluyen una edad ósea y analítica de sangre, donde se estima la acción de la GH a través de la medición de IGF-1/IGFBP3. Por otro lado, las reevaluaciones periódicas son las que permitirán la elaboración de una gráfica de crecimiento, así como la determinación de la velocidad de crecimiento. A través de esos datos se llevará a cabo, si se considera necesario, test de estímulo de secreción de GH (1,2,4).

1.2 ETIOLOGÍA DE TALLA BAJA

Dentro de las etiologías que causan hipocrecimiento, más del 50% se corresponden con una talla baja idiopática o talla baja familiar, y por tanto no presentan alteraciones en las pruebas complementarias realizadas y no precisan tratamiento con hormona de crecimiento. Así, de las patologías que causan talla baja, asociando alteraciones analíticas o radiológicas y que precisan tratamiento, destacan dos grandes grupos. El primero, las anomalías del eje GH-IGF1, dentro del cual el déficit de hormona de crecimiento (DGH) es predominante y puede ser aislado o combinado. Estos pacientes presentan un descenso en la velocidad de crecimiento con proporciones corporales normales, así como un acúmulo progresivo de grasa subcutánea y unos rasgos fenotípicos característicos, como son la cara redondeada o “de muñeca”, frente prominente, raíz nasal aplanada y voz aguda. Esta entidad puede tener un origen genético o adquirido y presentan una respuesta disminuida o indetectable tras el estímulo con GH, así como los niveles de IGF-1/IGFBP3 descendidos. Pueden asociar sintomatología diversa además de la talla baja, como es la hipoglucemia neonatal, ictericia, micropene, problemas para conciliar el sueño o defectos auditivos, entre otros, por la implicación del IGF-1 en el desarrollo a nivel coclear. El tratamiento de elección para estos pacientes es la hormona de crecimiento exclusivamente o asociada a otras hormonas en los casos de déficits combinados (1,4).

Por otro lado, destacan aquellos recién nacidos pequeños para la edad gestacional (PEG), es decir, con una longitud y/o peso al nacimiento menor de dos desviaciones estándar (aproximadamente percentil 3) para su edad gestacional, sexo y población. Esta entidad agrupa a su vez diferentes patologías que se clasifican en función de si asocian causas fetales, maternas, útero-placentarias, demográficas o ambientales. Los PEG, además de la talla baja, pueden presentar alteraciones durante el periodo neonatal como la policitemia, mala tolerancia digestiva, hiperbilirrubinemia, déficit de atención e hiperactividad, mayor riesgo de desarrollar síndrome metabólico o de adelanto puberal o pubarquia precoz. Se ha de realizar un seguimiento estrecho ya que muchos de ellos realizan un crecimiento recuperador espontáneo (catch-up) en los dos primeros años de vida. Aquellos pacientes que no realizan el catch-up en los primeros 4 años de vida son susceptibles de ser tratados con hormona de crecimiento (1,5).

1.3 HORMONA DE CRECIMIENTO

El primer tratamiento con GH en 1958 se llevó a cabo a partir de GH de hipófisis humana y posteriormente, en 1979, al descubrirse la secuencia de ADN que codifica la GH, se pudo desarrollar una nueva forma de GH recombinante, utilizando el material genético de E.Coli. Así, en 1985, se aprobó la primera rhGH por la *Food and drug administration* (FDA), indicada para pacientes

con DGH. Desde entonces, se han ido añadiendo más indicaciones al tratamiento con rhGH, como son actualmente, los pacientes PEG sin crecimiento recuperador a los 4 años, el síndrome de Turner, la insuficiencia renal crónica, la deficiencia de crecimiento debida a alteración del gen SHOX, el síndrome de Prader Willi, el síndrome de Noonan y el déficit primario grave de IGF-1 (6,7).

La vía de administración de elección es la subcutánea. Inicialmente se consideraban necesarias dos inyecciones semanales, pauta que ha sido aumentada a una vez por día tras la realización de estudios que demostraban que así se aumenta el efecto del tratamiento. Se han intentado otras formas de administración como la intranasal, inhalada o transdérmica, pero hasta el momento no hay suficiente evidencia para poder utilizarlas en la práctica clínica. La vía subcutánea tiene el inconveniente de asociar dolor o hematomas derivados de la inyección, por lo que se han diseñado dispositivos de administración sin aguja para reducir la incomodidad (6).

El objetivo del tratamiento con rhGH es reponer los efectos de dicha hormona con respecto al crecimiento, metabolismo y bienestar. Hoy en día, se dispone de suficiente evidencia para afirmar que el tratamiento con hormona de crecimiento mejora la talla final de los pacientes (4,8). Se recomiendan controles periódicos cada 6-12 meses para poder ajustar la dosis, así como la monitorización del IGF-1/IGFBP3. Se considera que una dosis de rhGH que mantenga niveles en suero de IGF1 en 0 DE es la más coste efectiva (3,4). Sin embargo, existe controversia sobre si la medida de niveles de IGF-1 es la mejor forma para monitorizar el tratamiento, ya que puede estar influenciada por las condiciones del paciente como su estado nutricional, enfermedad crónica o hepatopatía. Asimismo, es importante tener en cuenta existen variantes genéticas desconocidas hasta el momento, que podrían condicionar que a pacientes con mismas características y mismo tratamiento presenten diferente respuesta al tratamiento con rhGH (3).

La seguridad del tratamiento ha sido ampliamente demostrada y no se dispone de evidencia suficiente que indique que se aumenta el riesgo cardiovascular o de cáncer. Sin embargo, hay efectos secundarios descritos, aunque poco frecuentes, como hipertensión intracraneal, desplazamiento de la epífisis de la cabeza femoral, escoliosis o pancreatitis (4,6).

Como se puede ver, hay temas pendientes a cerca del tratamiento con hormona de crecimiento, como son la determinación de una medición más objetiva que el IGF-1 para llevar a cabo el

seguimiento o la investigación de factores genéticos y epigenéticos de niños con DGH, para poder individualizar la dosis según variantes que predispongan a mejor o peor respuesta. Pero estos no son los únicos, diferentes estudios proponen otras líneas de futuro para conseguir optimizar el manejo de estos pacientes, como son la mejora de la adherencia a la medicación, el establecimiento de una guía diagnóstica para determinar la mejor prueba de estimulación de GH, especialmente durante la etapa puberal, así como el punto de corte de diagnóstico de GH o la preparación para la transición de la edad pediátrica a la adulta, donde completarán su crecimiento (3,6).

1.3.1 ADHERENCIA AL TRATAMIENTO

La adherencia al tratamiento con rhGH varía entre un 5 y un 82%, dependiendo de los métodos y definiciones que se empleen para analizarla. No hay una definición establecida de lo que supone una baja adherencia, algunos autores la establecen en menor del 80 o 95%, otros, si esta interfiere en el paciente para conseguir el objetivo del tratamiento. Esta adherencia subóptima se relaciona por un lado con una menor respuesta al tratamiento y por tanto talla final más baja (8,11). Por otro lado, se ha asociado con una menor calidad de vida (11).

El rango de edad de los pacientes que son susceptibles a este tratamiento, es decir, aquellos en edad pediátrica o adolescentes, tiene sus peculiaridades. Entre ellas destaca la implicación de los padres o cuidadores en la administración de la medicación o el miedo a las inyecciones. Todos ellos son factores relevantes para la adherencia al tratamiento. Otros, más relacionados con el tratamiento que con la edad de los pacientes, son, las molestias derivadas del método de administración, las reacciones adversas o la duración de la pauta. En este sentido, un estudio realizado sobre población japonesa analiza las causas de no administración del tratamiento con rhGH y según las respuestas a los cuestionarios rellenados por los cuidadores de pacientes, las causas más frecuentes entre el grupo de baja adherencia son el olvido a la hora de administrarla o el miedo a los efectos secundarios (11). Por otro lado, hay aspectos de este tratamiento relacionado con los cuidadores, que son quienes administran la medicación en la mayoría de los casos. Así, encontramos desde insatisfacción con los efectos de este hasta la errónea percepción de que los pacientes hayan alcanzado talla diana. Ambas pueden influir en la administración del tratamiento. Por último, el entorno social de los pacientes puede influir, relacionándose una peor adherencia en aquellos con bajo nivel socioeconómico o ausencia de entrenamiento por parte del personal sanitario al cuidador que administra la medicación (9,10,11).

Como se ha mencionado previamente, dentro del grupo de pacientes que tienen una baja adherencia al tratamiento, algunos, tienen cuidadores que consideran que los pacientes ya han alcanzado su talla diana y otros simplemente lo dejan por llevar muchos años con el mismo tratamiento. Estos datos podrían explicar lo que muestran varios de los estudios realizados sobre adherencia al tratamiento con rhGH, los pacientes conforme avanzan en edad a lo largo de la infancia tienden a empeorar la adherencia y, por tanto, tienden a empeorar la velocidad de crecimiento en las últimas revisiones, hecho precedido en muchos de los casos de una mejoría del crecimiento en los controles previos (8,10,11). Sin embargo, hay diferentes hipótesis al respecto, también se han encontrado estudios que relacionan una menor adherencia a una edad más temprana de inicio del tratamiento y la explicación que se proponen es que aquellos pacientes que abandonan el tratamiento lo hacen pronto, y, por tanto, los que lo continúan, los “cumplidores” tiene una mayor adherencia también a largo plazo (13).

Esta baja adherencia supone un reto para los profesionales sanitarios, quienes, de hecho, tienden a subestimarla. Los pacientes afectos de patología crónica y con este tipo de tratamiento acuden a visitas frecuentes con su médico, y así, como ocurre en otras patologías como la hipertensión arterial o la diabetes mellitus y una mejor relación médico-paciente ha demostrado relacionarse con una mejor adherencia (11). Por otro lado, se han propuesto múltiples modelos para conseguir una correcta administración del tratamiento, la mayoría combinando varias estrategias para conseguir un enfoque individualizado y enfrentar los problemas que puedan surgir en cada familia con sus condiciones particulares (14) . Entre estas destaca la propuesta de cambio de un dispositivo libre de agujas frente al más comúnmente usado de múltiples dosis. De los estudios que discuten su eficacia, solo se dispone de un ensayo clínico aleatorizado en el que no encontraron diferencias entre ambos mecanismos de administración de la medicación. Por otro lado, se ha estudiado la posibilidad de dejar elegir dispositivo de inyección a los pacientes, con resultados estadísticamente significativos de una mejoría en la adherencia del grupo al que se le dejó elegir frente al que no. Otras estrategias empleadas hasta el momento serían por ejemplo el entrenamiento precoz para los padres con enfermería especializada, ofrecer la disponibilidad de acudir a un campamento educacional a los pacientes con este tratamiento, advertir en la consulta al paciente y sus cuidadores de probables problemas que pueden surgir a lo largo del tratamiento, monitorizar la administración del tratamiento, ofrecer un mayor tiempo de prescripción, para que puedan recoger la medicación si se termina, sin necesidad de esperar a la siguiente visita, animar a utilizar calendarios y recordatorios o recomendar grupos de apoyo. También se proponen otras,

relacionadas con el desarrollo de nueva tecnología, como el empleo de nuevos tratamientos con rhGH de larga duración, dispositivos electrónicos o aplicaciones móviles (5,11).

1.4 CALIDAD DE VIDA DE PACIENTES CON TALLA BAJA

Para hablar de adherencia a un tratamiento a largo plazo, hay que tener en cuenta aspectos tan importantes como la carga emocional o social de estos pacientes. Las personas con talla baja se exponen a la adversidad, a eventos estresantes y traumáticos de forma constante. De manera especial, los niños, pueden manifestar este estrés de forma muy intensa, constituyendo lo que se ha acuñado como el estrés traumático pediátrico. Este modelo se refiere a la vivencia del evento estresante tiene consecuencias psicológicas como la reexperimentación del suceso o la evitación, y que pueden ser perjudiciales para el paciente e impactar en su calidad de vida (15).

La calidad de vida relacionada con la salud se trata de un concepto multidimensional, subjetivo e integral. Deriva de la definición de salud de la organización mundial de la salud, estado de completo bienestar físico, mental y social y no simplemente la ausencia de afecciones o enfermedades. En concreto, nuestros pacientes, debido a su baja estatura, pueden presentar dificultades a lo largo de su vida en el ámbito social, académico o psicológico como la estigmatización, el bullying, o la subestimación. Todo ello puede tener una repercusión importante a nivel emocional causando sentimientos como tristeza, dolor, vergüenza o ira, así como experimentar una distorsión de su propia imagen o la baja autoestima (14,15,16). Todo esto puede ocurrir de manera especial en la adolescencia, periodo de mayor vulnerabilidad en la que los adolescentes pueden experimentar un deterioro en su calidad de vida acompañado de más problemas psicosociales que en otra franja de edad (14).

Además, es importante destacar que los problemas de estos pacientes no se limitan solo a la baja estatura, sino que existen otros factores que pueden mermar su calidad de vida, muchos de ellos descritos por los propios pacientes, como son la falta de apetito o fuerza y resistencia reducida, poca energía y falta de concentración o de sueño. Sin embargo, parece que todos ellos mejoran con la administración del tratamiento con rhGH (18).

1.5 PERSPECTIVA DE LOS PADRES/CUIDADORES

Este deterioro de la calidad de vida es percibido por los padres o cuidadores que conviven diariamente con los pacientes. Y la percepción que estos tengan sobre sus hijos es especialmente importante en familias de niños con necesidad de tratamientos crónicos. Los padres o cuidadores son los primeros en percibir la ansiedad de los niños respecto a la administración del tratamiento y pueden verse desafiados por la negativa que ellos muestran. Hay muy poca investigación realizada hasta el momento que se centre en la perspectiva del cuidador en las enfermedades propias de la infancia. De un estudio en el que se realiza una encuesta a los cuidadores de pacientes con talla baja y tratamiento con rhGH se recoge como inicialmente prima el sentido del deber a la hora de administrar la medicación, así como, las grandes expectativas con respecto a los efectos de esta, ya que se desea normalizar la apariencia de sus hijos. Sin embargo, posteriormente encuentran muchas áreas de incertidumbre y se enfrentan a desafíos constantes. Algunos de ellos son el hecho de introducir en su rutina en vida diaria las inyecciones, cambiar dinámicas familiares para poder administrar el tratamiento, por otro lado, asistir frecuentemente a las citas médicas o monitorizar la altura de sus hijos. Se le suma también la tendencia a sobreproteger a sus hijos y los sentimientos de impotencia y preocupación. A todo ello nos referimos como carga del cuidador, que, asociado a la falta de apoyo y comprensión, que relacionan con el estigma social de la baja estatura, provoca que muchos de ellos demanden finalmente apoyo médico y psicológico (19,20).

Asimismo, la carga del cuidador se considera también un indicador de la calidad de vida de los pacientes, ya que muchas veces de ello depende el bienestar de los niños y su capacidad de sobrellevar sus problemas (16,21). Es por eso por lo que también debe ser considerada dentro de la atención médica como parte de la intervención terapéutica (15,21). En este sentido de la mano del auge de las tecnologías de los últimos años, hoy en día se dispone de herramientas digitales orientadas a para ayudar a los pacientes y sus familias con este tipo de patología con el propósito de optimizar la adherencia al tratamiento y mejorar los resultados clínicos (9).

2. JUSTIFICACIÓN

Los problemas relacionados con el crecimiento y en concreto la talla baja tienen una prevalencia alta en la edad pediátrica. Este tipo de patología requiere de controles periódicos y medicación administrada de forma inyectable durante toda la infancia. Además, los pacientes se enfrentan diariamente a dificultades tanto a nivel físico, psicológico y social. Así, se puede producir un deterioro en la calidad de vida de quien la padece, que es percibida por los padres o cuidadores con quienes conviven diariamente.

Esta percepción puede aumentar la carga del cuidador y producir un empeoramiento en la adherencia al tratamiento. De ahí deriva el motivo de este trabajo que pretende comprobar si esta percepción afecta o no a la administración de la medicación y en consecuencia al crecimiento de los pacientes con talla baja.

3. OBJETIVOS

3.1 OBJETIVO GENERAL

Evaluar si la percepción de los padres/cuidadores de niños tratados con rhGH influye en la adherencia y la respuesta al tratamiento y analizar si los cambios que se puedan producir en dicha percepción podría modificarlos.

3.2 OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- Describir las características de los cuidadores y pacientes con talla baja y adherencia subóptima al tratamiento con rhGH
- Analizar si existe un cambio de adherencia tras el uso de una herramienta digital
- Conocer la evolución del crecimiento de los pacientes en diferentes momentos de su seguimiento
- Reconocer puntos específicos de mejora en los que focalizar el apoyo a las familias en el futuro.

4. MATERIAL Y MÉTODOS

4.1 DISEÑO DEL ESTUDIO

Se trata de un estudio mixto con parte prospectiva y retrospectiva que se realizó a través de las historias clínicas de una muestra de 56 pacientes en edad pediátrica y en seguimiento por las consultas de Endocrinología Pediátrica del Hospital Miguel Servet por baja estatura.

Criterios de inclusión:

- Pacientes en seguimiento por talla baja y con diagnóstico de déficit de hormona de crecimiento o pequeño para la edad gestacional
- Pacientes que requieren tratamiento con rhGH administrado por sus padres o cuidadores.
- Pacientes que tengan una adherencia al tratamiento menor o igual al 85%
- Pacientes cuyos padres o cuidadores dispongan de teléfono móvil inteligente.
- Pacientes cuyos padres o cuidadores han firmado el consentimiento informado.

Criterios de exclusión:

- Pacientes que no acuden a los controles
- Pacientes que se administran el tratamiento con rhGH ellos mismos.
- Pacientes con adherencia al tratamiento mayor o igual al 85%
- Pacientes cuyos padres o cuidadores no dispongan de teléfono móvil inteligente
- Imposibilidad de recuperar los datos de sus historias clínicas

Los padres o cuidadores no conocían que uno de los criterios de inclusión era el mal cumplimiento del tratamiento. Tras la entrega del consentimiento informado los cuidadores rellenaron unas encuestas relacionadas con la calidad de vida de los pacientes. El primer cuestionario se denomina Kidscreen-10 (anexo I), instrumento utilizado para medir la calidad de vida en niños y adolescentes de 8 a 18 años y que consta de 10 dimensiones, pero no es específico de los pacientes con talla baja. Estas dimensiones son: bienestar físico, bienestar psicológico, estado de ánimo, autopercepción, autonomía, relación con los padres y vida en el hogar, apoyo social, ambiente escolar, aceptación social (bullying) y recursos económicos (22). El segundo cuestionario realizado fue el QoLISSY (anexo II) y tiene como objetivo medir la calidad de vida relacionada con la salud del niños y adolescentes de 8 a 18 años con talla baja. Consta de 37 ítems que se agrupan dentro de 8 bloques que hacen referencia a diferentes aspectos de la vida del niño. Estos son los siguientes: físico, social, emocional, problemas secundarios a la baja estatura, convicciones, tratamiento, futuro y padres (23). Ambas utilizan una escala tipo Likert de respuesta 5 (siempre/extremadamente) a 1 (nunca/nada). Por último, se incluyó una pregunta a modo de resumen en la que se planteaba: “En general, ¿Cómo diría el chico que es su salud?”, con las siguientes opciones de respuesta: mala, regular, buena, muy buena, excelente.

Posteriormente se propuso a los padres o madres el uso de una herramienta digital que ha sido diseñada por un equipo multidisciplinar de médicos y psicólogos, pertenecientes a una empresa externa. Se trata de una aplicación móvil (anexo III) que brinda apoyo personalizado a cuidadores de pacientes con rhGH, de forma que puedan adoptar hábitos de vida más saludables y finalmente aumentar su adherencia al tratamiento. En concreto, el programa está diseñado para apoyar su bienestar mental a través conjunto de herramientas que incluyen contenido educativo y diferentes técnicas de gestión emocional como ejercicios de relajación tipo *mindfulness*. Los contenidos psicoeducativos se pueden dividir en 4 apartados: manejo del déficit de GH, hábitos que mejoran la vida con déficit de GH, adaptación a vivir con déficit de GH y cuidarse a sí mismo para poder cuidar de sus hijos, donde se incluye información sobre estrés y ansiedad. Además, proporciona recomendaciones a los cuidadores que ayudan a prevenir y gestionar situaciones estresantes y a aumentar su motivación. El sistema emplea en un modelo de cambio conductual basado en interacciones con el usuario a través de calificación de mensajes o cuestionarios. En definitiva, se basa en incorporar estrategias personalizadas para mejorar la salud física y mental de los padres y madres, reduciendo los niveles de estrés o ansiedad y potenciando sus fortalezas como cuidadores.

Los cuidadores utilizaron la aplicación durante 3 meses y al finalizar este tiempo se volvieron a realizar las mismas encuestas para analizar si existía algún cambio tras su uso.

Además, se recogieron variables generales sobre el cuidador y el menor:

- Edad, sexo, nivel educativo y estado civil del cuidador
- Edad, sexo e indicación del tratamiento con rhGH del menor

Por otro lado, se recogieron los siguientes datos antropométricos del menor en cuatro momentos del seguimiento en consulta: 6 meses antes del inicio de rhGH, al inicio del tratamiento, al inicio del uso de la herramienta digital y 6 meses después.

- Edad en años
- Talla en cm
- Peso en kg
- Índice de masa corporal (IMC) en kg/m²
- Velocidad de crecimiento (VC) en cm/año
- Última edad ósea realizada
- Pronóstico de talla en cm
- Estadio puberal (Tanner)
- Dosis de rhGH en mgr/kg/día
- Niveles de IGF1 en ng/ml, IGFBP3 en mcg/mL

Las variables talla, peso, IMC, VC, pronóstico de talla se incluyeron tanto en valores absolutos como en desviaciones estándar (DE) para poder compararlas independientemente de la edad y el sexo del paciente. Se escogió como estándar de referencia España 2010 para todas las variables menos para el pronóstico de talla que se utilizó España 2002. Ferrández et al. Por último, se documentó el porcentaje de adherencia en el reclutamiento y a los 6 meses del estudio.

4.2 ANALISIS ESTADÍSTICO

Para el análisis estadístico se empleó el programa informático IBM SPSS Statistic versión 20.0. En primer lugar, se llevó a cabo la parte de estadística descriptiva. Para ello, con las variables cuantitativas, se calculó la media, mediana, valor máximo y mínimo y desviación estándar y con las cualitativas se obtuvieron frecuencias.

En segundo lugar, se realizó un análisis inferencial en el que se escogieron test estadísticos asumiendo normalidad, ya que el tamaño muestral es mayor a 30. Para empezar, se realizó un análisis mediante la prueba T de Student para muestras emparejadas con el fin de comparar variables cuantitativas en diferentes momentos del estudio. Por un lado, se analizaron las variables de talla, peso, IMC, VC y pronóstico de talla, en DE, al inicio del tratamiento con rhGH y al final del seguimiento, así como al inicio del estudio con la aplicación móvil y al final del seguimiento. Por otro lado, se comparó la adherencia al inicio del estudio y a los 6 meses de este. Y por último se compararon las respuestas de los cuestionarios al inicio y a los 3 meses.

En tercer lugar, para determinar el grado de correlación entre variables cuantitativas paramétricas se empleó la correlación de Pearson. Dicho análisis comparaba los resultados de los cuestionarios (Kidscreen-10, QoLISSY) con el resto de las variables (edad en DE, talla en DE, VC en DE, tiempo bajo tratamiento, adherencia, pronóstico de talla en DE, IGF-1, IGFBP3 y dosis de rhGH) y se realizó tanto al inicio del estudio como a los 6 meses de este. Además, al inicio del estudio se añadieron las variables diferencia de talla al inicio del estudio con la del inicio del tratamiento con rhGH y diferencia de talla al inicio del estudio con la de 6 meses antes del tratamiento con rhGH. Por otro lado, a los 6 meses del inicio del estudio se correlacionaron las variables ya mencionadas y se añadieron la diferencia de talla a los 6 meses con la del inicio del tratamiento con rhGH y la diferencia de talla y VC a los 6 meses con respecto a las del inicio del estudio. Por último, se analizó la posible correlación entre la diferencia de respuestas a los dos cuestionarios (Kidscreen-10, QoLISSY) al inicio del estudio y 3 meses después del mismo, con la diferencia de talla, VC y adherencia al inicio del estudio y 6 meses después del mismo.

Para terminar, la pregunta general de percepción de salud divide a los sujetos en 5 grupos según sus respuestas, por lo que se trata de una variable cualitativa ordinal. Por lo tanto, para establecer si había diferencias entre los grupos con respecto a las diferentes variables estudiadas (edad en DE, talla en DE, VC en DE, adherencia, pronóstico de talla en DE, IGF-1, IGFBP3, dosis de rhGH, diferencia de talla y de adherencia a los 6 meses del estudio frente al inicio del estudio) se realizó una prueba de ANOVA. Además, se realizó el test de homogeneidad de varianzas y la prueba de Tukey para valorar las diferencias entre grupos.

Se consideró que existían diferencias estadísticamente significativas cuando p fue menor de 0,05 en las pruebas realizadas.

4.3 ASPECTOS ÉTICOS

Este trabajo ha sido aprobado por el Comité de Ética de la Investigación de la Comunidad de Aragón (CEICA, referencia PI20/494) (Anexo IV). Se elaboró una base de con datos disociados asignando a los pacientes un código de identificación y eliminando sus datos personales.

5. RESULTADOS

5.1 ESTADÍSTICA DESCRIPTIVA

5.1.1 PACIENTES INCLUIDOS EN EL ESTUDIO

Se reclutó a una muestra de 56 pacientes, de los cuales había un 50% de cada sexo.

5.1.1.1 SEIS MESES ANTES DE INICIAR TRATAMIENTO CON RHGH

Seis meses antes de iniciar el tratamiento con hormona de crecimiento la edad media de los pacientes era de $5,15 \pm 2,07$ años (rango 0,5-12,25) y presentaban una talla en $-2,88 \pm 0,86$ DE de la media, peso en $-2,05 \pm 0,88$ DE e IMC en $1,08 \pm 0,77$ DE (tabla 1). El estadio puberal medido con la escala de Tanner era infantil (I) en el 92,9% de los casos, II en el 3,6% y III en el 3,6%, ningún paciente estaba en estadio IV o V.

Tabla 1: Datos auxológicos 6 meses antes del inicio del tratamiento.

		N	Media	DE
Edad	Años	56	5,15	2,07
Talla	Cm	56	97,76	17,62
	DE	56	-2,88	0,86
Peso	Kg	56	14,60	6,22
	DE	56	-2,05	0,88
IMC	Kg/m ²	56	14,56	1,49
	DE	56	1,08	0,77

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), cm (centímetros), IMC (índice de masa corporal), Kg/m² (kilogramos/metros al cuadrado).

5.1.1.2 AL INICIO DEL TRATAMIENTO CON RHGH

Al inicio del tratamiento con hormona de crecimiento la edad media de la muestra era de $5,65 \pm 2,67$ (rango 1,5-12,25), con una talla en $-2,88 \pm 0,74$ DE, así como una

velocidad de crecimiento en $-0,97 \pm 1,31$ DE y un pronóstico de talla en $-2,63 \pm 1,31$ DE (tabla 2). Con relación al estadio puberal, el 92.9% presentaba un Tanner I, el 3,6% II y el 3,6% III, ningún paciente estaba en estadio IV o V.

Tabla 2: Datos auxológicos y dosis de rhGH al inicio del tratamiento.

		N	Media	DE
Edad	Años	56	5,65	2,67
Talla	Cm	56	100,69	16,53
	DE	56	-2,88	0,74
Peso	Kg	56	15,40	6,37
	DE	56	-2,02	0,76
IMC	Kg/m ²	56	14,54	1,54
	DE	56	-0,79	1,92
VC último año	Cm/año	56	5,92	1,70
	DE	56	-0,97	1,31
Pronóstico de talla*	Cm	13	150,42	10,56
	DE	13	-2,63	1,31
Dosis de rhGH	mgr/kg/día	56	0,03	0,004

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), cm (centímetros), IMC (índice de masa corporal), VC (velocidad de crecimiento), Kg/m² (kilogramos/metros al cuadrado), rhGH (hormona de crecimiento recombinante humana), mgr (miligramos).

*El pronóstico de talla solo se recogió en los pacientes en los que fue posible calcularlo (13).

5.1.1.3 AL INICIO DEL ESTUDIO

Al inicio del estudio en el que los padres o cuidadores emplearon una herramienta digital durante 3 meses, la media de edad de los pacientes era de $8,73 \pm 2,98$ (rango 2,5-14,83), con una talla en -

1,88 ± 0,78 DE y una velocidad de crecimiento en 0,58 ± 2,05 DE (tabla 3). Con respecto al estadio puberal el 78,6% presentaban un Tanner I, el 12,5% II, el 3,6% III, el 3,6% IV y el 1,8% Tanner V.

Tabla 3: Datos auxológicos, dosis de rhGH, factores de crecimiento y adherencia al inicio del estudio.

		N	Media	DE
Edad	Años	56	8,73	2,98
Talla	Cm	56	122,41	18,08
	DE	56	-1,88	0,78
Peso	Kg	56	24,65	10,51
	DE	56	-1,03	0,76
IMC	Kg/m ²	56	15,61	10,51
	DE	56	-0,84	0,69
VC últimos 6 meses	Cm/año	55	6,29	2,00
	DE	55	0,58	2,05
Pronóstico de talla*	Cm	39	159,42	11,76
	DE	39	-1,41	2,04
Dosis de GH	mgr/kg/día	56	0,03	0,004
IGF-1**	ng/ml	56	219,08	103,2
IGFBP3**	mcg/ml	55	6,29	1,69
Adherencia	%	56	80,09	4,886
Tiempo en tratamiento	Meses	56	37,68	27,79

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), cm (centímetros), IMC (índice de masa corporal), VC (velocidad de crecimiento), Kg/m² (kilogramos/metros al cuadrado), rhGH (hormona de crecimiento recombinante humana), mgr (miligramos), ng/ml (nanogramos/mililitro).

*El pronóstico de talla solo se recogió en los pacientes en los que fue posible calcularlo (39).

5.1.1.4 A LOS 6 MESES DEL INICIO DEL ESTUDIO

A los seis meses del inicio del estudio se mantuvo un tamaño muestral de 56 pacientes, con una edad media de $9,33 \pm 3,01$ (rango 3,00-15,30), una talla en $-1,77 \pm 0,85$ DE, una velocidad de crecimiento en $0,67 \pm 1,61$ DE, así como un pronóstico de talla de $-2,1 \pm 1,51$ DE (tabla 4). Con respecto al estadio puberal, el 66,1% se correspondía con un Tanner I, el 10,9% con un II, el 12,7% con un III, el 5,5% con un IV y el 3,6% con un V.

Tabla 4: Datos auxológicos, dosis de rhGH, factores de crecimiento y adherencia a los 6 meses del inicio del estudio.

		N	Media	DE
Edad	Años	56	9,33	3,01
Talla	Cm	55	125,08	17,63
	DE	55	-1,77	0,85
Peso	Kg	55	25,88	10,78
	DE	55	-1,33	0,64
IMC	kg/m ²	55	15,69	2,72
	DE	55	-0,86	0,69
VC últimos 6 meses	Cm/año	55	6,33	1,61
	DE	55	0,67	1,82
Pronóstico de talla*	Cm	18	155,98	12,82
	DE	18	-2,1	1,51
Dosis de GH	mgr/kg/día	56	0,032	0,005
IGF-1 **	ng/ml	24	250,06	121,6
IGFBP3**	mcg/ml	23	6,13	2,44
Adherencia	%	56	88,75	10,03
Tiempo en tratamiento	Meses	56	40,77	27,88

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), cm (centímetros), IMC (índice de masa corporal), VC (velocidad de crecimiento), Kg/m² (kilogramos/metros al cuadrado), mgr (miligramos), rhGH (hormona de crecimiento recombinante humana), ng/ml (nanogramos/mililitro).

*El pronóstico de talla solo se recogió en los pacientes en los que fue posible calcularlo (18). **Solo estaba disponible el IGF-1/IGFBP3 en 24 y 23 pacientes respectivamente

5.1.2 PADRES/CUIDADORES DE LOS PACIENTES INCLUIDOS EN EL ESTUDIO

Los padres/cuidadores que respondieron la encuesta tenían una media de edad de 41,68±7,34 años y fueron en su mayoría mujeres (figura 1).



Figura 1: Distribución por sexos de padres/cuidadores

El 68% estaban casados y el 70% habían cursado estudios universitarios o formación profesional (figura 3 y 4).



Figura 2: Estudios de padres/cuidadores

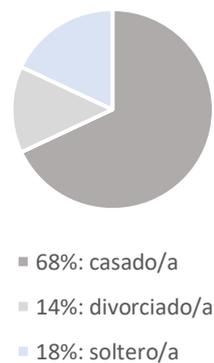


Figura 3: Estado civil de padres/cuidadores

5.2 ESTADÍSTICA INFERENCIAL

5.2.1 DATOS AUXOLÓGICOS A LO LARGO DEL SEGUIMIENTO

Con respecto a los datos auxológicos se pudo comprobar que existían diferencias estadísticamente significativas entre el inicio del tratamiento y a los 6 meses del estudio, es decir, al final del seguimiento, en concreto, en lo que se refiere a la desviación estándar de la talla, el peso y la velocidad de crecimiento (tabla 5).

Tabla 5: Diferencia de datos auxológicos desde el inicio del tratamiento hasta 6 meses tras el inicio del estudio.

	Al inicio de rhGH		6 meses tras estudio		Ganancia		p
	N	Media ± DE	N	Media ± DE	N	Media ± DE	
Talla (DE)	56	-2,88 ± 0,74	55	-1,77 ± 0,85	55	1,11 ± 0,84	0,00
Peso (DE)	56	-2,02 ± 0,76	55	-1,33 ± 0,64	55	0,70 ± 0,62	0,00
IMC (DE)	56	-0,79 ± 1,92	55	-0,86 ± 0,69	55	-0,07 ± 1,94	0,76
VC (DE)	56	-0,97 ± 1,31	55	0,67 ± 1,82	55	1,67 ± 2,30	0,00
Pronóstico de talla (DE)	5	-2,71 ± 2,13	5	-2,27 ± 2,41	5	0,44 ± 0,41	0,07

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), VC (velocidad de crecimiento).

5.2.2 DATOS AUXOLÓGICOS TRAS 6 MESES DEL INICIO DEL ESTUDIO

Tras el estudio se continuó el seguimiento durante 6 meses. Los datos auxológicos al inicio del estudio y a los 6 meses del estudio presentan diferencias estadísticamente significativas en la talla medida en desviaciones estándar (tabla 6).

Tabla 6: Diferencia de datos auxológicos desde el inicio del estudio hasta 6 meses tras el inicio del estudio.

	Al inicio del estudio		6 meses tras estudio		Ganancia		p
	N	Media ± DE	N	Media ± DE	N	Media ± DE	
Talla (DE)	56	-1,88 ± 0,78	55	-1,77 ± 0,85	55	0,13 ± 0,31	0,002
Peso (DE)	56	-1,03 ± 0,76	55	-1,33 ± 0,64	55	0,001 ± 0,37	0,974
IMC (DE)	56	-0,84 ± 0,69	55	-0,86 ± 0,69	55	-0,016 ± 0,22	0,584
VC (DE)	54	0,58 ± 2,05	54	0,67 ± 1,82	54	0,18 ± 2,67	0,623
Pronóstico de talla (DE)	15	-2,23 ± 1,31	15	-2,1 ± 1,55	15	0,06 ± 0,97	0,797

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), VC (velocidad de crecimiento).

5.2.3 ADHERENCIA TRAS 6 MESES DEL INICIO DEL ESTUDIO

Al comparar la adherencia al tratamiento al inicio del estudio y tras 6 meses se obtuvo un resultado significativo ($p= 0,00$) que demostraba que había mejoría en la adherencia en los diferentes momentos (figura 5).

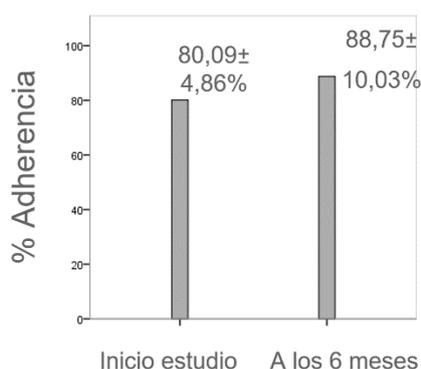


Figura 5: % de adherencia antes y después del estudio

5.2.4 RESPUESTAS A LOS CUESTIONARIOS TRAS PARTICIPAR EN EL ESTUDIO

Comparamos los resultados en las encuestas al inicio y al final del estudio de la aplicación móvil y todos los cuestionarios, y sus diferentes apartados se obtuvieron resultados estadísticamente

significativos, que demostraban que hay diferencias en las respuestas de ambos momentos. En concreto, en la pregunta general, el cuestionario Kidscreen-10 y en todos los aspectos del QoLISSY a excepción de los apartados 4 y 5 se objetiva una mejoría en las respuestas. Sin embargo, en los apartados 4 y 5 del QoLISSY que hacen referencia al manejo de los problemas diarios de la talla baja y a las convicciones de los padres en relación con la talla baja, se puede observar un empeoramiento en las respuestas (tabla 7).

Tabla 7: Diferencia en las respuestas a las encuestas desde el inicio del estudio hasta 3 meses después.

	Al inicio del estudio		3 meses tras estudio		Incremento/ Descenso		p
	N	Media ± DE	N	Media ± DE	N	Media ± DE	
Pregunta general	56	3,45 ± 0,80	56	4,21 ± 0,84	56	0,76 ± 0,87	0,00
Kidscreen-10	56	39,11 ± 5,12	56	43,46 ± 5,99	56	4,35 ± 5,88	0,00
QoLISSY 1 *	56	23,95 ± 4,81	56	25,80 ± 4,30	56	1,85 ± 5,31	0,011
QoLISSY 2	56	33,09 ± 5,44	56	35,36 ± 4,55	56	2,26 ± 5,94	0,006
QoLISSY 3	56	33,11 ± 5,17	56	34,55 ± 4,02	56	1,44 ± 5,75	0,065
QoLISSY 4	56	26,04 ± 6,74	56	19,89 ± 8,60	56	-6,14 ± 8,79	0,00
QoLISSY 5	56	16,61 ± 3,68	56	14,73 ± 4,35	56	-1,87 ± 4,68	0,004
QoLISSY 6	56	31,39 ± 10,23	56	39,52 ± 12,21	56	8,12 ± 11,50	0,00
QoLISSY 7	56	37,05 ± 6,99	56	42,30 ± 7,07	56	5,25 ± 8,33	0,00
QoLISSY 8	56	19,57 ± 5,15	56	21,61 ± 3,49	56	2,03 ± 5,86	0,012
QoLISSY	56	220,80 ± 26,43	56	233,76 ± 27,80	56	12,96 ± 37,82	0,013

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar)

5.2.5 CORRELACIÓN ENTRE RESPUESTA AL TRATAMIENTO Y RESPUESTAS A CUESTIONARIOS

5.2.5.1 AL INICIO DEL ESTUDIO

En primer lugar, en cuanto a las encuestas realizadas al inicio del estudio, se comprobó como aquellos pacientes que habían crecido más desde el inicio del tratamiento, mostraban mejor percepción de la calidad de vida de forma general, medida en la encuesta Kidscreen-10 ($r=0,334$ y $p=0,043$) (tabla 10).

Además, se encontró que a mayor edad de los niños en esos momentos, los padres gestionan mejor todo aquello relacionado con la talla baja ($r=0,316$, $p=0,018$) (tabla 10).

Por otro lado, una mayor diferencia de talla desde el inicio del tratamiento, se relaciona con una mayor aceptación del tratamiento o confianza en los efectos de este ($r=0,337$ y $p=0,011$). También, en este sentido, en aquellos con mejor velocidad de crecimiento comprobamos una mayor aceptación del tratamiento y una mejor gestión de los problemas derivados del día a día con talla baja ($r=0,288$, $p=0,033$) y ($r=0,279$, $p=0,039$) (figuras 6 y 7) (tabla 10).

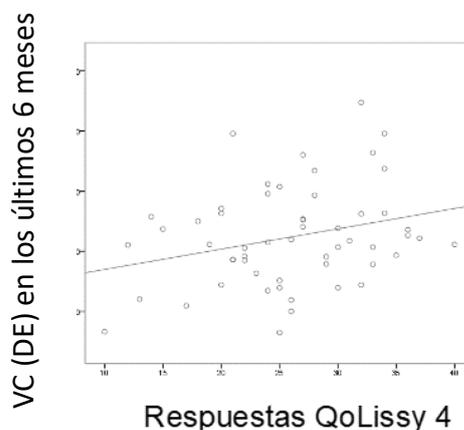
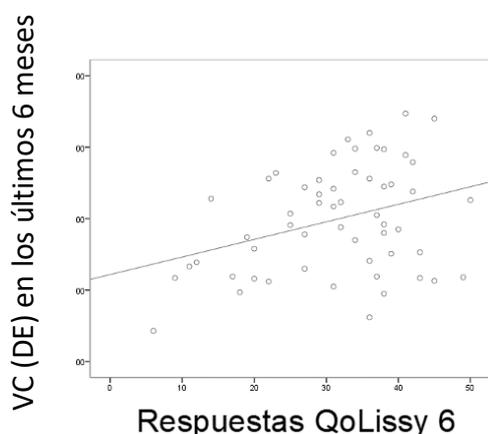


Figura 6: Gráfico de correlación QoLISSY 6 con VC Figura 7: Gráfico de correlación QoLISSY 4 con VC

Abreviaturas: DE (desviaciones estándar), VC (velocidad de crecimiento).

Además, se observó una tendencia a disminuir la adherencia con la duración del tratamiento, aunque sin llegar a ser estadísticamente significativa ($r=-0.23$ $p=0.088$) (figura 9).

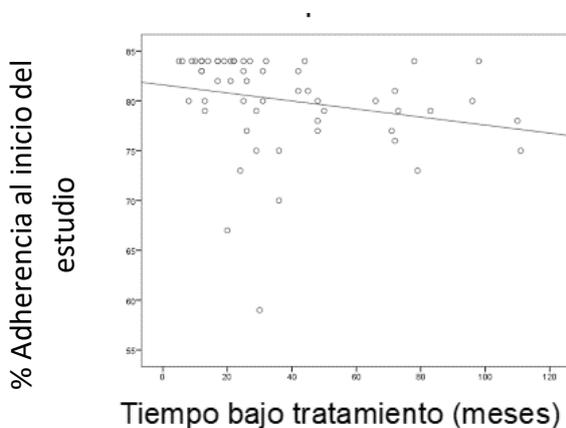


Figura 9: Gráfico de correlación entre % adherencia y tiempo bajo tratamiento al inicio del estudio

Por último, se vieron diferencias significativas entre los grupos de respuesta a la pregunta general de percepción de calidad de vida con respecto a el pronóstico de talla en el inicio del estudio. En concreto, los del grupo excelente tienen mejores pronósticos con respecto a los del grupo 3 y 4 ($p=0,022$, $p=0,014$). El grupo 1 (mala) se excluyó del análisis porque en él no se encontraba ningún paciente (tabla 8) (figura 8).

Tabla 8: Respuestas a pregunta general de calidad de vida y pronóstico de talla al inicio del estudio.

¿Cómo diría el chico que es su salud?	Grupo	N	Pronóstico de talla	p
Regular	2	3	-1,09 ± 0,78	-
Buena	3	16	-1,64 ± 1,15	$p=0,022$
Muy buena	4	17	-1,84 ± 1,24	$p=0,014$
Excelente	5	3	1,92 ± 6,15	-

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar)

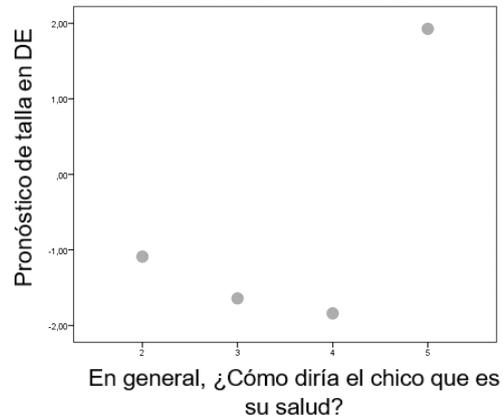


Figura 8: Diferencias de pronóstico de talla en DE según la respuesta a la pregunta general de calidad de vida.

Abreviaturas: DE (desviaciones estándar).

No se encontraron asociaciones significativas entre el resto de las variables comparadas.

5.2.5.2 A LOS 6 MESES DEL INICIO DEL ESTUDIO

A los 3 meses del inicio del estudio se vuelven a rellenar las encuestas y a los 6 meses se vuelve a medir los datos auxológicos y de adherencia. Realizamos de nuevo correlación de Pearson entre dichas variables y encontramos que aquellos con mayor ganancia de talla presentan un peor resultado en lo que respecta a la gestión emocional ($r=-0,283$ y $p 0,034$) (figura 10) (tabla 10).

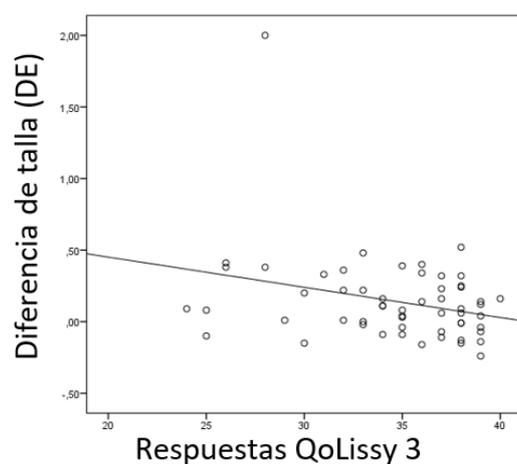


Figura 10: Relación entre la diferencia de talla durante el estudio y QoLISSY parte 3 a los 6 meses del inicio del estudio

Abreviaturas: DE (desviaciones estándar).

En ese momento del estudio, el grupo de pacientes que presentaban mejor adherencia al tratamiento, presentaba una peor percepción de calidad de vida por parte de sus padres o cuidadores. Y por tanto se encontraron diferencias significativas al comparar el grupo 3, que perciben la calidad de vida como buena, con respecto a los grupos 4 y 5, que la perciben como muy buena o excelente ($p= 0,003$, $p=0,03$) (tabla 9) (figura 11). Se excluyeron del análisis tanto el grupo 1 (mala), donde no se encontraba ningún paciente, como el 2 (regular) por solo incluir 2 pacientes.

Tabla 9: Respuestas a pregunta general de calidad de vida, adherencia a los 6 meses del inicio del estudio

¿Cómo diría el chico que es su salud?	Grupo	N	Adherencia (%) a los 6 meses	p
Buena	3	12	96,33 ± 4,29	-
Muy buena	4	17	84,29 ± 10,64	$p=0,003$
Excelente	5	26	87,88 ± 9,83	$p=0,030$

Abreviaturas: N (número de pacientes).

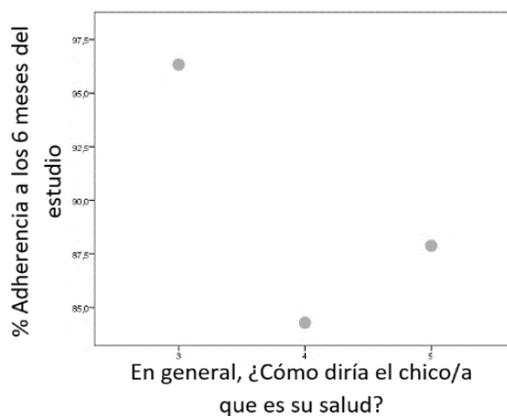


Figura 11: Adherencia (%) a los 6 meses del inicio del estudio según la respuesta a la pregunta general de calidad de vida.

No se encontraron asociaciones significativas entre el resto de las variables analizadas.

Tabla 10: Resultados estadísticamente significativos de Correlación de Pearson.

Al inicio del estudio						
	N	Kidscreen-10	QoLISSY 3	QoLISSY 4	QoLISSY 6	QoLISSY 8
Edad	56					r=0,316 p=0,018
VC (DE) últimos 6 meses	54			r=0,279 p=0,039	r=0,288 p=0,033	
Diferencia de talla desde el inicio del tratamiento	56	r=0,334 p=0,043			r=0,337 p=0,011	

A los 6 meses						
Diferencia de talla desde el inicio del estudio	56		r= -0,283 p= 0,034			

Abreviaturas: N (número de pacientes), DE (desviaciones estándar), VC (velocidad de crecimiento).

5.2.5.3 DIFERENCIAS ENTRE LAS VARIABLES AL INICIO Y TRAS 6 MESES DE FINALIZAR EL ESTUDIO.

No se encontraron correlaciones significativas entre las diferencias de los distintos parámetros antropométricos y las diferencias en las respuestas a las encuestas.

6. DISCUSIÓN

La percepción de los padres o cuidadores de la calidad de vida de los pacientes es un tema de creciente interés, ya que puede aportar información útil para los profesionales a la hora de conocer el estado de salud de los niños, desde una perspectiva no solo física sino también psicológica y social. Esta percepción juega un papel importante en enfermedades crónicas como pueden ser el cáncer, la obesidad, la diabetes o la celiaquía, en las que es esencial la adherencia al tratamiento o a una dieta específica para conseguir un adecuado control de la enfermedad (30). Sin embargo, en muchas ocasiones esto se acompaña de un deterioro de la calidad de vida de los pacientes. Dentro del campo de la pediatría la perspectiva de los padres ya ha sido investigada en diferentes ámbitos, entre ellos la Endocrinología Pediátrica, y en concreto la talla baja (24,25). Diversos estudios plantean cómo conocer los problemas de la calidad de vida de estos pacientes, incluso se ha desarrollado un cuestionario específico para ello, el QoLISSY (23). Sin embargo, pocos han contemplado previamente la percepción de la calidad de vida de los niños o adolescentes como un concepto dinámico evaluando en distintos momentos de su evolución.

Una vez se conoce la percepción calidad de vida de los pacientes, ya sea a través de ellos mismos o de sus cuidadores, en un momento puntual o en varios, el siguiente paso es plantear qué factores están relacionados con ella. En nuestro estudio, tanto de forma general como específica en diferentes aspectos de la calidad de vida de los pacientes, se comprobó inicialmente que aquellos con mejor respuesta al tratamiento, valorada como mayor velocidad de crecimiento o mayor ganancia de talla desde el inicio del tratamiento, presentaban una mejor percepción de la calidad de vida. En concreto, gestionaban mejor todo lo relacionado con la carga diaria del tratamiento y los efectos secundarios a la talla baja. De hecho, en estudios previos ya se muestra una mejor calidad de vida en los niños que han alcanzado una talla normal tras su tratamiento con rhGH, en concreto en los pacientes PEG o con DGH, frente a aquellos con talla baja que están aún sin tratamiento (16,24,25).

En nuestra investigación pudimos comprobar cómo los cuidadores que al iniciar el estudio consideraban que sus hijos tenían una calidad de vida excelente, habían sido informados de un mejor pronóstico de talla medido en DE en la consulta del médico, frente a aquellos que la consideraban muy buena, buena o regular. Como se ve en estudios previos, los padres de los pacientes tienden a confiar en el tratamiento y a tener altas expectativas acerca de la talla final de

sus hijos (16,18,19). Por lo tanto, no es de extrañar que los que consideran que sus hijos están en el camino de conseguir una talla final adecuada, también valoren mejor la calidad de vida de los niños.

Por otro lado, encontramos que, a menor edad del paciente, sus padres gestionan peor todo lo relacionado con el tratamiento, tienen menor confianza en su efecto y les supone más costoso y estresante administrarlo. Probablemente durante esta etapa para los cuidadores, no solo es más complicado administrar la medicación, sino también apreciar su efecto sobre el crecimiento, debido al poco tiempo de tratamiento. Todo ello puede aumentar la carga del cuidador y mermar la calidad de vida de los padres y de los niños (15).

Además, a los 6 meses del inicio del estudio, los pacientes que habían crecido menos se mostraban más afectados emocionalmente por tener una baja estatura. Este resultado ya lo encontramos en otros estudios, aunque con el enfoque contrario. En pacientes con talla baja que reciben rhGH durante años muestran un mejor resultado en el aspecto emocional, probablemente por la mejoría de la talla que presentan, al compararlos con el grupo no tratado (25).

En cuanto a la adherencia al tratamiento, tal y como se muestra en otros trabajos, observamos una tendencia a empeorar con la duración del tratamiento, aunque sin alcanzar la significación estadística (26,27). Posiblemente esto se debe a que este estudio se realizó desde el inicio con pacientes con baja adherencia, sin embargo, si se hubiese escogido la muestra sin tener en cuenta la adherencia, habría más probabilidad de obtener resultados significativos en este punto.

Como se ha mencionado previamente, dentro de esta representación de pacientes con baja adherencia al tratamiento, encontramos al inicio del estudio que los que están respondiendo mejor tienen una mejor calidad de vida percibida por sus padres. Sin embargo, también observamos que aquellos que tienen mayor adherencia a los 6 meses del inicio del estudio lo hacen a costa de empeorar su calidad de vida. Es decir, parece que el hecho de cumplir adecuadamente el tratamiento les supone un esfuerzo significativo. En un trabajo realizado sobre población adulta en tratamiento con rhGH también relacionan los pacientes con peor calidad de vida "física" con una mejor adherencia. No obstante, también ven asociación entre aquellos que tienen una peor calidad de vida "mental" con aquellos con menor adherencia al tratamiento (28). En nuestro caso,

probablemente por los efectos secundarios físicos del tratamiento, la calidad de vida de los pacientes que cumplen mejor el tratamiento se ve más afectada. Sin embargo, no se ha encontrado diferencias significativas a este nivel en los apartados de cuestionario QoLISSY que subdivide los diferentes campos de la calidad de vida, por lo que no podemos concluir si esta afectación de la calidad de vida es a expensas de la parte física o psicológica de los pacientes.

Por otro lado, hasta donde conocemos, no se han propuesto previamente intervenciones específicas para modificar esta percepción en el campo del crecimiento. No obstante, en otros ámbitos de la pediatría, en concreto en oncología, un estudio previo ya planteaba, de forma similar al nuestro, modificar la percepción de la calidad de vida de los padres a través de una intervención digital, una web con contenido educativo y de apoyo a cerca de la enfermedad de sus hijos, con resultados positivos (30). En nuestro estudio, al reevaluar tras el uso de la aplicación móvil, objetivamos mejoría significativa tanto en la adherencia como en la mayoría de respuestas a los cuestionarios de calidad de vida. En concreto en los apartados del Qo-LISSY que preguntan sobre el manejo de los problemas diarios de la talla baja y las convicciones de los padres con respecto a la talla baja (¿cree que si fuera más alto/a sería más feliz?), no solo no se ha visto mejoría, sino que muestran un empeoramiento significativo a los 3 meses. Puede ser que esto ocurra como consecuencia del aumento en la adherencia o porque dichas creencias estén muy arraigadas en los cuidadores y el tiempo del estudio no es suficiente para cambiarlas. Además, no se obtuvo correlación significativa entre los cambios que se produjeron en la adherencia, en el crecimiento y en las respuestas a las encuestas y esto probablemente también se deba a que el tiempo del estudio es reducido para poder encontrar cambios. Por lo tanto, aunque podemos intuir que este tipo de intervenciones son eficaces para mejorar la adherencia y la calidad de vida percibida, de forma general, no conocemos si aquellos que mejoran su adherencia también crecen más y tienen mejor calidad de vida.

En conclusión, nuestro estudio aporta, por un lado, una visión dinámica de la percepción de la calidad de vida de los pacientes, de la mano del seguimiento del crecimiento de los niños en consulta que nos ha permitido conocer qué factores influyen a lo largo del tiempo en que se perciba como mejor o peor la calidad de vida de los pacientes. Y, por otro lado, evaluamos el efecto de una intervención sobre los padres y cuidadores sobre la adherencia y la percepción de la calidad de vida, con resultados positivos que nos animan a continuar por esta línea de investigación.

7. LIMITACIONES Y FORTALEZAS

7.1 LIMITACIONES

En primer lugar, el tiempo de seguimiento de los pacientes es reducido y probablemente por este motivo no se ha podido establecer correlación entre aquellos que han mejorado sus respuestas a los cuestionarios y los que han respondido mejor al tratamiento. Sin embargo, en solo 6 meses la adherencia ha mejorado de forma significativa. Este dato sugiere que a medio-largo plazo aquellos que hayan mejorado su adherencia crecerían mejor y esto se acompañaría de un cambio en su calidad de vida, que probablemente podríamos observar si prolongáramos el tiempo de seguimiento.

En segundo lugar, el estudio se ha realizado con pacientes con adherencia al tratamiento menor o igual al 85%. Sin embargo, si se hubieran incluido los que tienen mejor cumplimiento, probablemente a lo largo del tiempo se hubieran podido observar cambios más llamativos en la adherencia. Además, existía poca variabilidad dentro de la baja adherencia, ya que el 90% se encontraban entre el 75% y el 84%. Por lo tanto, si la muestra hubiera sido más heterogénea, posiblemente hubiéramos obtenido más diversidad en los resultados. Además, hubiera permitido subdividir según el grado de adherencia al tratamiento y así valorar cómo percibe cada subgrupo la calidad de vida de sus hijos y si esta cambia más a lo largo del tiempo.

Por último, el tamaño muestral es limitado. En concreto, a la hora de analizar por subgrupos, como ocurre en el caso del ANOVA realizado sobre la pregunta general de calidad de vida, obtuvimos resultados entre grupos con tamaño muestral pequeño y consecuentemente se tuvieron que excluir del análisis algunos de los subgrupos.

7.2 FORTALEZAS

Como puntos fuertes de este trabajo, en primer lugar, busca ayudar a pacientes con baja adherencia a un tratamiento a largo plazo, un problema muy frecuente en diferentes ámbitos de la medicina y que supone un reto para los profesionales sanitarios. Para hacerlo, propone una solución digital, consiguiendo aplicar las nuevas tecnologías al día a día de la práctica clínica. Además, la

intervención no se realiza en este caso sobre los pacientes, sino sobre sus padres o cuidadores, poniendo en valor el papel que tienen en patologías que requieren cuidados y tratamientos prolongados en el tiempo.

Por último, este estudio propone una perspectiva que se ha empleado en muy pocas ocasiones con anterioridad, y que se centra en la percepción de la calidad de vida de los pacientes con un tratamiento inyectable, utilizando a los cuidadores como intermediarios y aportando una visión dinámica a lo largo del tiempo

8. CONCLUSIONES

- 1) La respuesta al tratamiento se relaciona de forma positiva con la percepción de la calidad de vida. Los pacientes con mayor velocidad de crecimiento o mayor ganancia de talla desde el inicio del tratamiento tienen mejor calidad de vida percibida por su padres o cuidadores en lo que respecta a la carga diaria del tratamiento y los efectos secundarios a la talla baja.
- 2) Los padres/cuidadores que respondieron la encuesta tenían una media de edad de 41 años, fueron en su mayoría mujeres, casadas y con estudios universitarios o formación profesional.
- 3) La percepción de la calidad de vida de los pacientes por parte de los padres o cuidadores se modifica a lo largo del tiempo tras del uso de una herramienta digital. Dicho cambio influye en la adherencia al tratamiento, aumentándola significativamente, y mejora su crecimiento.
- 4) Los pacientes que mejoran más su adherencia a los 6 meses del inicio del estudio lo hacen a costa de empeorar su calidad de vida, lo que refuerza la idea de que cumplir con este tipo de tratamiento supone un esfuerzo importante para ellos.
- 5) Los cuidadores que consideran que sus hijos tienen una calidad de vida excelente al inicio del estudio, habían sido informado de un mejor pronóstico de talla que el resto de los pacientes. Probablemente al conocer los efectos positivos del tratamiento, la confianza en este aumenta y la percepción de la calidad de vida de los niños también.
- 6) Los padres de los pacientes más jóvenes gestionan peor todo lo relacionado con el tratamiento, y aquellos que han crecido menos a los 6 meses del inicio del estudio, se muestran más afectados emocionalmente por tener una baja estatura. Posiblemente ambos grupos necesiten un mayor apoyo social, de su entorno y de los profesionales sanitarios.

9. BIBLIOGRAFÍA

1. Manual de diagnóstico y terapéutica en Endocrinología Pediátrica. J. Guerrero-Fdez I. González Casado. V.1.1. Editorial médica Ergon. 2020.
2. J. Guerrero-Fdez. A. Cartón Sánchez. A. Barrera Bonis. J. Menéndez Suso. J. Ruiz Dominguez. Manual de diagnóstico y terapéutica en pediatría. 6ª ed. Editorial médica Panamericana; 2018
3. Collett-Solberg PF, Ambler G, Backeljauw PF, Bidlingmaier M, Biller BMK, Boguszewski MCS, et al. Diagnosis, Genetics, and Therapy of Short Stature in Children: A Growth Hormone Research Society International Perspective. *Horm Res Paediatr*. 2019 Dec 1;92(1):1–14.
4. Boguszewski MCS. Growth hormone deficiency and replacement in children. Vol. 22, *Reviews in Endocrine and Metabolic Disorders*. Springer; 2021. p. 101–8.
5. De Leonibus C, De Marco S, Stevens A, Clayton P, Chiarelli F, Mohn A. Growth Hormone Deficiency in Prepubertal Children: Predictive Markers of Cardiovascular Disease. Vol. 85, *Hormone Research in Paediatrics*. S. Karger AG; 2016. p. 363–71.
6. Ranke MB, Wit JM. Growth hormone-past, present and future. Vol. 14, *Nature Reviews Endocrinology*. Nature Publishing Group; 2018. p. 285–300.
7. Criterios para la utilización racional en niños de la hormona de crecimiento y el factor de crecimiento semejante a la insulina tipo 1 (IGF-1) humano. Actualizados en febrero 2023. Secretaría General de Sanidad.
8. Fisher BG, Acerini CL. Understanding the growth hormone therapy adherence paradigm: A systematic review. Vol. 79, *Hormone Research in Paediatrics*. 2013. p. 189–96.
9. Loftus J, Wogen J, Oliveri D, Benjumea D, Jhingran P, Chen Y, et al. Persistence with daily growth hormone among children and adolescents with growth hormone deficiency in the UK. *Front Endocrinol (Lausanne)*. 2022 Nov 3;13.
10. Akazawa M, Shima D, Sato T, Shoji E, Lopresti M, Nishi R. Perception of Adherence to Daily Human Growth Hormone Treatments Among Pediatric and Adolescent Patients in

Japan: A Cross-Sectional Survey of Physicians and Caregivers. *Patient Prefer Adherence*. 2022;16:3081–94.

11. Bradley S. Miller, MD, PhD; Deborah Rotenstein, MD; Larry C. Deeb, MD; John Germak, MD; and Tami Wisniewski, MPH. Persistence With Growth Hormone Therapy in Pediatric Patients. Vol. 6, *The American Journal of Pharmacy Benefits*. 2017. p 9-17.

12. Farfel A, Shalitin S, Morag N, Meyerovitch J. Long-term adherence to growth hormone therapy in a large health maintenance organization cohort. *Growth Hormone and IGF Research*. 2019 Feb 1;44:1–5.

13. Haverkamp F, Gasteyger C. A review of biopsychosocial strategies to prevent and overcome early-recognized poor adherence in growth hormone therapy of children. Vol. 14, *Journal of Medical Economics*. 2011. p. 448–57.

14. Kazak AE, Kassam-Adams N, Schneider S, Zelikovsky N, Alderfer MA, Rourke M. An integrative model of pediatric medical traumatic stress. *J Pediatr Psychol*. 2006;31(4):343–55.

15. Silva N, Bullinger M, Sommer R, Rohenkohl A, Witt S, Quitmann J. Children's psychosocial functioning and parents' quality of life in paediatric short stature: The mediating role of caregiving stress. *Clin Psychol Psychother*. 2018 Jan 1;25(1):e107–18.

16. Voss LD, Mulligan J. Bullying in school: Are short pupils at risk? Questionnaire study in a cohort. *BMJ*. 2000 Mar 4;320(7235):612–3.

17. Brod M, Alolga SL, Beck JF, Wilkinson L, Højbjerg L, Rasmussen MH. Understanding burden of illness for child growth hormone deficiency. *Quality of Life Research*. 2017 Jul 1;26(7):1673–86.

18. van Dongen N, Kaein AA. Parents' views on growth hormone treatment for their children: Psychosocial issues. *Patient Prefer Adherence*. 2012;6:547–53.

19. Alsaigh R, Coyne I. Mothers' Experiences of Caring for Children Receiving Growth Hormone Treatment. *J Pediatr Nurs*. 2019 Nov 1;49:e63–73.

20. Carona C, Silva N, Crespo C, Canavarro MC. Caregiving Burden and Parent–Child Quality of Life Outcomes in Neurodevelopmental Conditions: The Mediating Role of Behavioral Disengagement. *J Clin Psychol Med Settings*. 2014 Dec 1;21(4):320–8.

21. Savage MO, Fernandez-Luque L, Graham S, van Dommelen P, Araujo M, de Arriba A, et al. Adherence to r-hGH Therapy in Pediatric Growth Hormone Deficiency: Current Perspectives on How Patient-Generated Data Will Transform r-hGH Treatment Towards Integrated Care. Vol. 16, Patient Preference and Adherence. Dove Medical Press Ltd; 2022. p. 1663–71.
22. Ravens-Sieberer U, Gosch A, Rajmil L, Erhart M, Bruil J, Duer W, et al. KIDSCREEN-52 quality-of-life measure for children and adolescents. Vol. 5, Expert Review of Pharmacoeconomics and Outcomes Research. 2005. p. 353–64.
23. Bullinger M, Quitmann J, Power M, Herdman M, Mimoun E, DeBusk K, et al. Assessing the quality of life of health-referred children and adolescents with short stature: Development and psychometric testing of the QoLISSY instrument. Health Qual Life Outcomes. 2013 May 7;11(1).
24. Bullinger M, Kołtowska-Häggström M, Sandberg D, Chaplin J, Wollmann H, Noeker M, et al. Health-related quality of life of children and adolescents with growth hormone deficiency or idiopathic short stature - Part 2: Available results and future directions. Vol. 72, Hormone Research. 2009. p. 74–81.
25. Bannink EMN, Van Pareren YK, Theunissen NCM, Raat H, Mulder PGM, Hokken-Koelega ACS. Quality of life in adolescents born small for gestational age: Does growth hormone make a difference? Horm Res. 2005 Nov;64(4):166–74.
26. Assefi A, van Dommelen P, Arnaud L, Otero C, Fernandez-Luque L, Koledova E, et al. Adherence to Growth Hormone Treatment Using a Connected Device in Latin America: Real-World Exploratory Descriptive Analysis Study. JMIR Mhealth Uhealth. 2022 Jan 20;10(1):e32626.
27. Orso M, Polistena B, Granato S, Novelli G, Virgilio R Di, Torre D La, et al. Pediatric growth hormone treatment in Italy: A systematic review of epidemiology, quality of life, treatment adherence, and economic impact. Vol. 17, PLoS ONE. Public Library of Science; 2022.
28. Siegel S, Unger N, Streetz-van der Werf C, Karges W, Schilbach K, Schröder B, et al. Adults' Adherence to Growth Hormone Replacement in Relation to Medication-Related Beliefs, Coping and Quality of Life - An Exploratory Analysis. Front Endocrinol (Lausanne). 2021 May 24;12.

30. Sigurdardottir AO, Svavarsdottir EK, Rayens MK, Gokun Y. The Impact of a Web-Based Educational and Support Intervention on Parents' Perception of Their Children's Cancer Quality of Life: An Exploratory Study. *Journal of Pediatric Oncology Nursing*. 2014;31(3):154-165. doi:10.1177/1043454213515334

10.ANEXOS

ANEXO I: KIDSCREEN-10

1. ¿El chico/a se sintió bien y físicamente en forma?
2. ¿El chico/a se sintió lleno de energía?
3. ¿El chico/a se sintió triste?
4. ¿El chico/a se sintió solo?
5. ¿El chico/a tuvo suficiente tiempo para él/ella?
6. ¿El chico/a hizo las cosas que quería hacer en su tiempo libre?
7. ¿Los padres del chico/a fueron justos con él/ella?
8. ¿El chico/a se divirtió con sus amigos/as?
9. ¿Al chico/a le fue bien en la escuela o en el colegio?
10. ¿El chico/a pudo presentar atención en clase?

ANEXO II: QoLISSY

QoLISSY 1: FÍSICO

- ¿La estatura de mi hijo/a le impide hacer cosas que hacen otros chicos/as de su edad?
- ¿Debido a su estatura, mi hijo/a tiene problemas cada día?
- ¿Debido a su estatura, mi hijo/a tiene más problemas que los/las demás para alcanzar las cosas?
- ¿Debido a su estatura, mi hijo/a depende de los demás?
- ¿Cuándo habla con chicos/as de su edad, la mayoría de veces tiene que mirar hacia arriba?
- ¿Le molesta que otros chicos/as de su edad puedan subir a algunas atracciones y el/ella no pueda?

QoLISSY 2: SOCIAL

- ¿Le molesta que en la escuela le pregunten sobre su estatura?
- ¿Se siente bajito/a cuando está con otros chicos/as de su edad?
- ¿Las demás personas creen que es más joven de lo que es en realidad?
- ¿Debido a su estatura se ríen de él/ella y le insultan?
- ¿Lo/la tratan diferente que a los demás por culpa de su estatura?
- ¿Los demás sólo se fijan en su estatura?
- ¿Debido a su estatura tiene problemas para encontrar la ropa que le gusta?
- ¿Es duro que no lo/la incluyan en ciertas actividades por culpa de la estatura?

QoLISSY 3: EMOCIONAL

- ¿Debido a su estatura mi hijo/a se siente diferente a otros chicos/as de su edad?
- ¿Está harto/a de oír comentarios sobre su estatura?
- ¿Debido a su estatura es más tímido/a?
- ¿Está contento/a con su estatura?
- ¿Está inseguro/a debido a su estatura?
- ¿Está triste debido a su estatura?
- ¿A pesar de su estatura, está bien consigo mismo/a?
- ¿Su estatura le molesta?

QoLISSY 4: PROBLEMAS SECUNDARIOS A LA BAJA ESTATURA

- ¿Mi hijo/a se dice a si mismo/a que está bien ser bajito/a?
- ¿Mi hijo/a intenta acostumbrarse a su estatura?

- ¿Si los demás se burlan de él/ella, sabe defenderse?
- ¿Si los demás se burlan de él/ella, sus amigos le/la defienden?
- ¿Si los demás se burlan de él/ella, intenta hablar con ellos?
- ¿Cuándo se siente mal por su estatura, pasa algún tiempo con sus amigos/as?
- ¿Cuándo se siente mal por su estatura, piensa en algo que le guste?
- ¿Cuándo se siente mal por su estatura, intenta pensar en cosas en las que es bueno/a?
- ¿Cuándo se siente mal por su estatura, habla de ello con la familia y con los amigos?
- ¿Cuándo se siente mal por su estatura, intenta olvidarlo?

QoLISSY 5: CONVICCIONES

- ¿Cree que si fuera más alto/a sería más feliz?
- ¿Cree que las personas altas gustan más?
- ¿Cree que es importante ser alto/a?
- ¿Cree que ser alto/a ayuda en la vida?

QoLISSY 6: TRATAMIENTO

- ¿ Gracias al tratamiento mi hijo/a está más fuerte y tiene más energía?
- ¿ Sus amigos/as entienden que necesita el tratamiento?
- ¿ Se siente bien gracias a su tratamiento?
- ¿ El tratamiento realmente le ayuda a crecer?
- ¿ Ponerse inyecciones cada día es molesto para mi hijo/a?
- ¿ Las inyecciones son dolorosas para mi hijo/a?
- ¿ Gracias al tratamiento está más fuerte físicamente?
- ¿ Gracias al tratamiento mi hijo/a está más contento/a con él/ella mismo/a?

- ¿ Gracias al tratamiento puede participar en actividades con sus amigos/as?
- ¿ Gracias al tratamiento puede concentrarse mejor?
- ¿ Gracias al tratamiento le es más fácil alcanzar cosas?
- ¿ Gracias al tratamiento es mejor haciendo deporte?
- ¿ Gracias al tratamiento puede llevar la ropa que le gusta?
- ¿ Gracias al tratamiento está más cómodo/a en presencia de los demás?

QoLISSY 7: FUTURO

- ¿ Le preocupa lo que dirá la gente de su estatura en el futuro?
- ¿ Le preocupa que cuando sea mayor pueda tener problemas para conseguir ciertos trabajos por culpa de su estatura?
- ¿ Le preocupa que cuando sea mayor pueda tener problemas para encontrar pareja por culpa de su estatura?
- ¿ Le preocupa que cuando sea mayor pueda tener problemas para encajar con los demás por culpa de su estatura?
- ¿ Le preocupa no crecer lo suficiente?

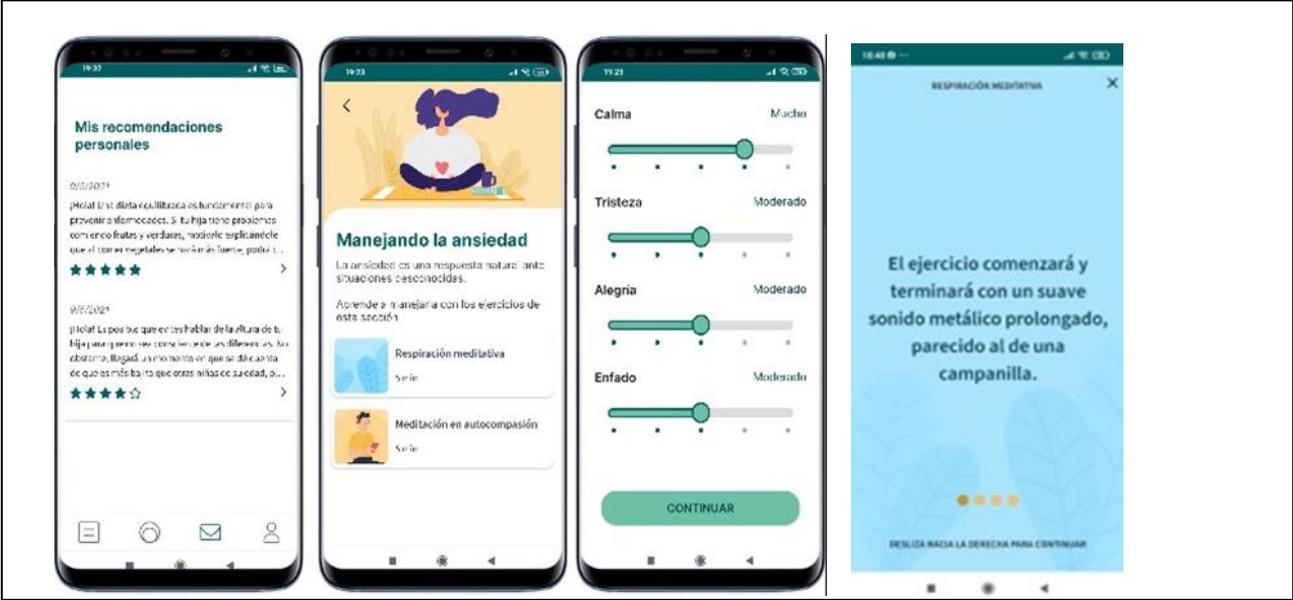
QoLISSY 8: PADRES

- ¿ Debido a la estatura de mi hijo/a, me preocupa que puedan herirle/a con insultos?
- ¿ Me preocupa estar sobreprotegiéndole/la?
- ¿ Me siento mal porque mi hijo/a esté sufriendo (por la estatura)?
- ¿ Me enfado por la reacción que tienen otras personas ante la estatura de mi hijo/a?
- ¿ Me siento impotente ante las reacciones de otras personas por la estatura de mi hijo/a?
- ¿ Evito entrar en discusiones sobre la estatura de mi hijo/a?
- ¿ Confío en el tratamiento de la hormona del crecimiento?

- ¿ Los problemas de crecimiento de mi hijo/a me hacen sentir ansiedad?
- ¿ Los problemas de crecimiento de mi hijo/a me hacen sentir impotente?
- ¿ Los problemas de crecimiento de mi hijo/a me hacen sentir pena por el/ella?
- ¿ Los problemas de crecimiento de mi hijo/a hacen que me preocupe de que otros chicos/as puedan ser crueles con él/ella?

ANEXO III: APLICACIÓN MÓVIL





ANEXO IV: INFORME DICTAMEN FAVORABLE CEICA



Informe Dictamen Favorable

C.P. - C.I. PI20/494

21 de octubre de 2020

Dña. María González Hinjos, Secretaria del CEIC Aragón (CEICA)

CERTIFICA

1º. Que el CEIC Aragón (CEICA) en su reunión del día 21/10/2020, Acta N° 20/2020 ha evaluado la propuesta del investigador referida al estudio:

Título: Caring: Feasibility Study of Digital Health for caregivers emotional and self-management support of children receiving growth hormone treatment. (Estudio de viabilidad de Salud Digital para el apoyo emocional y autogestión dirigido a cuidadores de niños bajo tratamiento de la hormona del crecimiento)

Promotor: Salumedia Labs S.L.U

Investigadores Principales: Antonio de Arriba Muñoz (HU Miguel Servet) y Luis Fernández Luque (Salumedia Labs S.L.U)

Versión protocolo: 11th August 2020 – Version 1.4

Documento de información y consentimiento: Versión 1.0, de fecha 06/10/2020

2º. Considera que

- El proyecto se plantea siguiendo los requisitos de la Ley 14/2007, de 3 de julio, de Investigación Biomédica y su realización es pertinente.
- Se cumplen los requisitos necesarios de idoneidad del protocolo en relación con los objetivos del estudio y están justificados los riesgos y molestias previsibles para el sujeto.
- Es adecuada la utilización de los datos y los documentos elaborados para la obtención del consentimiento.
- El alcance de las compensaciones económicas previstas no interfiere con el respeto a los postulados éticos.
- La capacidad de los Investigadores y los medios disponibles son apropiados para llevar a cabo el estudio.

3º. Por lo que este CEIC emite **DICTAMEN FAVORABLE a la realización del estudio.**

Lo que firmo en Zaragoza

GONZALEZ
HINJOS
MARIA - DNI
03857456B

Firmado digitalmente
por GONZALEZ
HINJOS MARIA - DNI
03857456B
Fecha: 2020.10.23
13:36:38 +02'00'

María González Hinjos
Secretaria del CEIC Aragón (CEICA)