

ESCOLA DE MEDICINA  
PÓS-GRADUAÇÃO PEDIATRIA E SAÚDE DA CRIANÇA  
DISSERTAÇÃO DO MESTRADO-PUCRS

MARCIA HELENA RODRIGUES DE FREITAS AREND

AVALIAÇÃO DA CONCORDÂNCIA ENTRE O AUTORRELATO DA CRIANÇA E DO  
PROXY NA AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA À SAÚDE EM PACIENTES COM  
BRONQUIOLITE OBLITERANTE

PORTO ALEGRE  
2018

PÓS-GRADUAÇÃO - *STRICTO SENSU*



Pontifícia Universidade Católica  
do Rio Grande do Sul

---

---

**MARCIA HELENA RODRIGUES DE FREITAS AREND**

**AVALIAÇÃO DA CONCORDÂNCIA ENTRE O AUTORRELATO DA CRIANÇA E  
DO PROXY NA AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA À SAÚDE EM  
PACIENTES COM BRONQUIOLITE OBLITERANTE**

Dissertação apresentada como requisito para obtenção do grau de Mestre em Saúde da Criança pelo Programa de Pós-Graduação em Pediatria e Saúde da Criança da Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul.

Orientadora: Profa. Dra. Rita Mattiello

Porto Alegre

2018

---

---

## Ficha Catalográfica

A681a Arend, Marcia Helena Rodrigues de Freitas

Avaliação da concordância entre o autorrelato da criança e do proxy na avaliação da qualidade de vida à saúde em pacientes com bronquiolite obliterante / Marcia Helena Rodrigues de Freitas Arend . – 2018.

046.

Dissertação (Mestrado) – Programa de Pós-Graduação em Medicina/Pediatria e Saúde da Criança, PUCRS.

Orientadora: Profa. Dra. Rita Mattiello.

1. Qualidade de vida relacionada à saúde. 2. Bronquiolite Obliterante. 3. Crianças. I. Mattiello, Rita. II. Título.

Elaborada pelo Sistema de Geração Automática de Ficha Catalográfica da PUCRS  
com os dados fornecidos pelo(a) autor(a).

Bibliotecária responsável: Salete Maria Sartori CRB-10/1363

---

---

**MARCIA HELENA RODRIGUES DE FREITAS AREND**

**AVALIAÇÃO DA CONCORDÂNCIA ENTRE O AUTORRELATO DA CRIANÇA E  
DO PROXY NA AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA À SAÚDE EM  
PACIENTES COM BRONQUIOLITE OBLITERANTE**

Dissertação apresentada como requisito para obtenção do grau de Mestre em Saúde da Criança pelo Programa de Pós-Graduação em Pediatria e Saúde da Criança da Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul.

Orientador: Profa. Dra. Rita Mattiello

Aprovada em: \_\_\_\_ de \_\_\_\_\_ de \_\_\_\_\_

**BANCA EXAMINADORA**

---

Profa. Dra. Linda Booij

---

Prof. Dr. Edgar Sarria

---

Profa. Dra. Gabriele Zanirati

Porto Alegre

2018

---

---

## AGRADECIMENTOS

Agradecer a Dra. Rita Mattiello pela paciência, pela partilha de seus conhecimentos e ensinamentos, dos quais levarei para a vida. És um exemplo de mestre, serás lembrada com carinho e ternura.

Ao meu eterno amor João Felipe e meu filho amado Vinícius pelo apoio e paciência.

A minha nora Joana pelo acolhimento em sua residência.

A minha querida amiga Eloá Chiquete pelo apoio nos momentos mais difíceis.

A secretária Carla pelo carinho, dedicação e disponibilidade.

As colegas Alessandra, Desirre e Janaina pelas longas conversas e trocas de ideias.

---

---

## RESUMO

### Avaliação da Concordância entre o Autorrelato da Criança e do Proxy na Avaliação da Qualidade de vida à Saúde em Pacientes com Bronquiolite Obliterante

**Introdução:** Bronquiolite Obliterante Pós-Infecciosa é uma doença pulmonar obstrutiva crônica, que afeta as vias aéreas distais. A doença é rara e grave, não tem uma causa definida, inúmeras causas levam ao quadro de um insulto secundário. Medidas subjetivas como qualidade de vida relacionada à saúde (QVRS), estão sendo cada vez mais utilizado para aferir o impacto da Bronquiolite Obliterante na vida das crianças. Atualmente, existe uma escassez de estudos que tenham avaliado a qualidade de vida relacionada à saúde em pacientes com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa.

**Objetivo:** Avaliar o nível de concordância da Qualidade de Vida Relacionada à Saúde (QVRS) entre crianças com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa (BOPI) e seus pais (Proxy).

**Métodos:** Participantes com idade entre 8-17 anos, previamente diagnosticados com BOPI, foram acompanhados regularmente em ambulatórios especializados de pneumologia pediátrica. Os pais ou os representantes legais (cuidadores) destes pacientes também foram recrutados para o estudo. Para avaliação da QVRS foi aplicada a versão validada do instrumento *Pediatric Quality of Life Inventory* 4.0 (PedsQL). Os cuidadores responderam a versão correspondente do questionário para o Proxy. A correlação dos relatos da QVRS entre as crianças e seus Proxy foi determinado mediante o coeficiente de correlação intraclasses (CCI) e teste t para amostras independentes.

**Resultados:** A maioria dos participantes era do sexo masculino, (79,4%), a média de idade foi de 11,8 anos. Os CCI entre cada um dos domínios do PedsQL, bem como o escore total foram inferiores a 0,6, variando entre 0,267 (pobre) e 0,530 (satisfatória). As médias dos domínios e do escore total dos questionários respondidos pelos pacientes e aquelas relatadas pelos responsáveis comparadas demonstraram que o escore dos cuidadores foi significativamente menor do que o das crianças, com exceção apenas para o domínio social, cuja diferença não foi significativa. Todavia, as diferenças ultrapassaram a diferença mínima importante de 4 pontos no escore para todos os domínios.

**Conclusão:** Os Proxys dos pacientes com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa tendem a relatar menores escores de qualidade de vida que os próprios pacientes.

**Descritores:** Qualidade de vida relacionada à saúde, Bronquiolite Obliterante, Crianças

---

---

## ABSTRACT

### Concordance between child and proxy of Health-Related Quality of Life in Bronchiolitis Obliterans

**Introduction:** Post-Infectious Obliterating Bronchiolitis is a chronic obstructive pulmonary disease that affects the distal airways. Pneumopathy is rare and severe, does not have a definite cause, numerous causes lead to the picture of a secondary insult. Subjective measures such as health-related quality of life (HRQoL) are being increasingly used to measure the impact of Bronchiolitis Obliterans on children's lives. Currently, there is a paucity of studies that have evaluated health-related quality of life in patients with Post-Infectious Bronchiolitis Obliterating.

**Objective:** To assess the level of agreement in health-related quality of life (HRQoL) between children with Post Infectious Bronchiolitis Obliterans (PIBOPI) and their parent (so-called proxy).

**Methodology:** Participants aged between 8-17, which had been previously diagnosed with PIBOPI, were regularly followed up at a pediatric pulmonology outpatient clinic. Parents or legal guardians (caregivers) of these patients were also recruited for them. A validated and age-appropriate version of the Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 (PedsQL) was used for the assessment of HRQoL. Caregivers completed the corresponding proxy versions of the questionnaire. The correlation between self and proxy reports of HRQoL was determined by intra-class correlation coefficient (ICC), and dependent t-tests.

**Results:** The majority of the participants were males (79.4%), and the average age was 11.8 years. Intra-class correlations between each of the PedsQL domains and the total score were all lower than 0.6, with a range between 0.267 (poor) and 0.530 (fair). When the means of each domain and the total score of the questionnaires were compared, caregivers were observed to score significantly lower HRQoL than children, with the exception of the social domain in which the difference was not significant. However, the differences in score exceeded the critical threshold difference of 4 points in all other domains.

**Conclusions:** Proxies from patients with Post Infectious Bronchiolitis Obliterans tend to report lower quality of life scores than patients themselves.

**Keywords:** Health-Related Quality of Life, Bronchiolitis Obliterans

---

---

## LISTA DE ABREVIATURAS

|                        |  |
|------------------------|--|
| <b>BOPI</b>            | Bronquiolite Obliterante Pós Infecciosa              |
| <b>CCI</b>             | Coefficiente de Correlação Intraclasse               |
| <b>CVF:</b>            | Capacidade Vital Forçada                             |
| <b>FEF 25%-75%:</b>    | Fluxo Expiratório Forçado Médio ao 25-75%            |
| <b><i>PedsQL</i></b>   | Pediatric Quality of Life Inventory                  |
| <b>PedsQLTM</b>        | Avaliação da Qualidade de Vida-Questionário Genético |
| <b>VEF<sub>1</sub></b> | Volume Expiratório Forçado no Primeiro segundo       |

---



---

## SUMÁRIO

|   |           |
|---|-----------|
| <b>1 INTRODUÇÃO</b>   | <b>9</b>  |
| <b>2 REVISÃO DE LITERATURA</b>                                      | <b>10</b> |
| <b>3 OBJETIVO</b>   | <b>12</b> |
| <b>4 HIPÓTESE</b>   | <b>13</b> |
| <b>5 MÉTODOS</b>  | <b>14</b> |
| 5.1 DESENHO DO ESTUDO   | 14        |
| 5.2 CONTEXTO  | 14        |
| 5.3 PARTICIPANTES   | 15        |
| 5.3.1 Critérios de Inclusão   | 15        |
| 5.3.2 Critérios de Exclusão   | 15        |
| 5.4 VARIÁVEIS DO ESTUDO   | 15        |
| 5.5 VARIÁVEL DE DESFECHO  | 15        |
| 5.6 FONTES DE DADOS E MENSURAÇÃO                                    | 16        |
| 5.6.1 Função Pulmonar   | 16        |
| 5.6.2 Qualidade de Vida Relacionada à Saúde (QVRS)                  | 16        |
| 5.7 VIÉS  | 17        |
| 5.8 TAMANHO AMSTRAL   | 17        |
| 5.9 ANÁLISE ESTATÍSTICA   | 17        |
| 5.10 ASPECTOS ÉTICOS  | 18        |
| <b>6 CONCLUSÃO</b>  | <b>19</b> |
| <b>7 REFERÊNCIAS</b>  | <b>21</b> |
| <b>ANEXOS</b>   | <b>24</b> |
| <b>ANEXO 1 - QUESTIONÁRIO PEDIÁTRICO SOBRE QUALIDADE DE VIDA</b>    | <b>25</b> |
| <b>ANEXO 2 - AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA EM CRIANÇA COM ASMA</b> | <b>27</b> |
| <b>ANEXO 3 - APROVAÇÃO DO CEP</b>                                   | <b>28</b> |
| <b>ANEXO 4 - APROVAÇÃO DO SIPESQ</b>                                | <b>29</b> |
| <b>APÊNDICE</b>   | <b>30</b> |
| <b>APÊNDICE 1- ARTIGO ORIGINAL</b>                                  | <b>31</b> |

---

## **1 INTRODUÇÃO**

A Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa (BOPI) é uma pneumopatia rara e grave que se caracteriza pela obstrução crônica das vias aéreas menores. A ocorrência inicial da BOPI aparece nos primeiros anos de vida e está fortemente associado à infecção por adenovírus e à necessidade de cuidados intensivos (1). Um artigo publicado recentemente sugeriu que pacientes com BOPI apresentam escores de qualidade de vida relacionada a saúde menores que indivíduos saudáveis no escore total e nos âmbitos da saúde e da escola(2).

O tratamento dos pacientes com doenças pulmonares crônicas tem sido focado no manejo dos sintomas e da qualidade de vida(3). No entanto, medidas subjetivas têm sido promovidas na prática clínica como ferramentas fundamentais para os cuidados dos pacientes com doenças crônicas(4).

Contudo, no contexto pediátrico, frequentemente os responsáveis são solicitados a cooperarem com o estado de saúde dos filhos uma vez que se questiona a capacidade da criança de relatar informações clinicamente válidas, particularmente em maneiras relacionados à qualidade de vida por serem incompreensíveis e abstratos(5). As crianças são agentes ativos que exercem influência no seu contexto ao mesmo tempo em que são moldados pelo ambiente que estão inseridas (5, 6). Atualmente, um número importante de questionários é voltado aos pais “proxys” para a avaliação da qualidade de vida das crianças. No entanto, a avaliação da qualidade de vida é subjetiva e a concordância entre os relatos dos pais e dos filhos pode ser influenciada por diversos fatores ambientais, inclusive pela gravidade ou impacto da doença(5).

Apesar da gravidade da BOPI e do seu provável comprometimento da qualidade de vida, ainda são escassos os estudos que avaliaram a concordância dos jovens de seus proxys em relação aos relatos da qualidade de vida relacionada à saúde (QVRS). As informações, tanto da criança quanto dos pais tem uma alta importância, pois influenciam a efetividade do tratamento proposto (6). Sendo assim, o objetivo do presente estudo é o avaliar a concordância entre o auto relato da criança e do proxy na avaliação da Qualidade de Vida relacionada à saúde.

---

## **2 REVISÃO DE LITERATURA**

Bronquiolite Obliterante (BOPI) é uma doença pulmonar obstrutiva crônica pouco frequente e grave em crianças(1, 7-11). Afeta cerca de 2-3% de todas as crianças menores de um ano são internadas no hospital com bronquiolite, geralmente durante uma epidemia sazonal (12).

A Bronquiolite Obliterante implica em um processo crônico de necrotização, no qual ocorrem a fibrose e a cicatrização, que afetam as vias aéreas distais, resultando obliteração progressiva com a doença pulmonar obstrutiva resultante(1, 11, 13, 14). Inúmeras causas de BOPI já foram identificadas, como: infecções virais, germes atípicos ou bactérias, aspiração de corpo estranho ou conteúdo gástrico, por inalação de toxinas e/ou colagenoses ou após transplante de pulmão ou de medula óssea (8). Existem, também, relatos de BOPI secundárias ao sarampo, Mycoplasma Pneumoniase, influenza, parainfluenza, vírus respiratório sincicial e varicela(1, 8, 13, 15).

O diagnóstico da doença deve sempre ser cogitado quando, em criança hígida(16), encontra-se um quadro de sintoma respiratório crônico por mais 4 a 8 semanas após o episódio de infecção aguda, grave(8). No entanto, BOPI é mais frequente em crianças após infecção grave no aparelho respiratório nas vias aéreas inferiores(17).

Medidas subjetivas como qualidade de vida relacionada à saúde (QVRS), estão sendo cada vez mais utilizado para aferir o impacto da doença e as diferentes intervenções (2, 10, 18, 19). As ferramentas de avaliação da QVRS podem ser utilizadas como desfecho clínico nas pesquisas que avaliam a eficácia das intervenções, assim como na identificação de problemas relacionados a saúde global e específica (20). A principal justificativa para o uso de instrumentos que avaliam a QVRS é a promoção da saúde do paciente a partir da sua própria perspectiva(21, 22).

A qualidade de vida pode ser medida pelas informações relatada pela própria criança no questionário, assim como provável interferência direta na repercussão do tratamento(23). Nas últimas duas décadas o aumento no uso de instrumentos para avaliar a intervenção e impacto da doença aumentou gradualmente (23).

Portanto as intervenções passam a ser realizadas visando à melhora da qualidade de

---

vida do indivíduo(24, 25). As medidas de qualidade de vida proporcionam informações sobre como as doenças crônicas envolvem-se com os aspectos sociais, emocionais e físicos das crianças(23). Assim os questionários passam a ter um papel importante como agentes de comunicação entre pacientes, pais e profissionais da saúde(4, 26).

No entanto, contexto pediátrico, frequentemente, os pais passam a ser informantes das respostas do tratamento ou das doenças nas crianças(18, 26). A discordância de uma informação entre crianças e pais pode trazer diferentes respostas aos profissionais da saúde (3, 4).

Evidências em outras doenças crônicas relatam, em geral, que os responsáveis respondem menores escores de qualidade de vida relacionada à saúde quando comparados com os pacientes(6). Na BOPI ainda são escassos os estudos que avaliem a concordância entre o relato dos responsáveis e das crianças em relação a QVRS.

Em suma, considerando-se a gravidade da BOPI e tendo em vista a possível ligação com a qualidade de vida das crianças, atualmente há uma escassez de estudos para avaliar a concordância dos jovens e de seus proxys na avaliação da qualidade de vida relacionada à saúde (QVRS). Portanto, o objetivo do presente estudo é avaliar a concordância entre o autorrelato da criança e do proxy na avaliação do questionário de Qualidade de Vida Relacionada à Saúde.

---

**3 OBJETIVO**

Avaliar a concordância entre o autorrelato da criança e do proxy na avaliação da Qualidade de Vida relacionada à saúde em pacientes com Bronquiolite Obliterante.

---

#### **4 HIPÓTESE**

A hipótese da presente pesquisa se baseia nos Proxy dos pacientes com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa relatam menores escores de qualidade de vida relacionada à saúde ao comparado com os pacientes.

---

## 5 MÉTODOS

### 5.1 DESENHO DO ESTUDO

Estudo transversal.

### 5.2 CONTEXTO

Foi utilizado na pesquisa dados de um banco de dados de um projeto guarda chuva, intitulado “Avaliação Cardiorrespiratória com Crianças com Bronquiolite Obliterante Pós viral”. Para o presente artigo foi usado apenas os dados contemplados no banco de dados do projeto guarda chuva.

Os pacientes incluídos na presente pesquisa realizaram acompanhamento periódico em ambulatórios de Pneumopediatria do Sistema Único de Saúde (SUS), em dois hospitais de médio (ou grande) porte, na cidade de Porto Alegre, Rio Grande do Sul.

O recrutamento dos indivíduos da amostra foi ocorrido em duas instituições públicas de referência para o tratamento da doença, enquanto os questionários e os testes de função pulmonar foram realizados em uma terceira instituição, referência desse tipo de exame.

O diagnóstico foi baseado na associação de critérios clínicos, radiológicos e funcionais definidos previamente<sup>1</sup>: 1) história de infecção pulmonar aguda em criança menor de dois anos previamente hígida; 2) sinais e sintomas respiratórios permanentes, após quatro semanas do evento inicial; 3) tomografia computadorizada de alta resolução com alterações características de Bronquiolite Obliterante (BOPI), tais como: padrão em mosaico, bronquiectasias, atelectasias; 4) limitação ao fluxo aéreo mediante provas de função pulmonar; 5) exclusão de outras afecções pulmonares crônicas que cursam com sintomas respiratórios persistentes como: Asma grave, Fibrose Cística, Deficiência de alfa-1-antitripsina e Imunodeficiências, entre outras.

---

### 5.3 PARTICIPANTES

#### 5.3.1 Critérios de Inclusão

Foram incluídas crianças e adolescentes com diagnóstico prévio de BOPI, com idade entre 8 e 17 anos.

#### 5.3.2 Critérios de Exclusão

Como critério de exclusão foram considerados pacientes que apresentarem limitação cognitiva ou alguma doença crônica, que o impossibilite de responder o questionário.

### 5.4 VARIÁVEIS DO ESTUDO

Qualidade de vida relacionada à saúde.

### 5.5 VARIÁVEL DE DESFECHO

Autorrelato da criança e do proxy na avaliação da Qualidade de Vida relacionada à saúde.

---



## 5.6 FONTES DE DADOS E MENSURAÇÃO

### 5.6.1 Função Pulmonar

Os procedimentos técnicos e os critérios de aceitabilidade e reprodutibilidade para a realização dos exames de função pulmonar seguiram as diretrizes da *American Thoracic Society* (27). A espirometria foi realizada em um equipamento Master-Screen (Jaeger, Alemanha) e os seguintes parâmetros foram avaliados: capacidade vital forçada (CVF, L), volume expiratório forçado no primeiro segundo (VEF1, L), relação entre o VEF1 e o CVF (VEF1/CVF), fluxo expiratório forçado entre 25% e 75% da CVF (FEF25-75%). Os dados foram representados em percentual do previsto a partir dos valores de referência de Knudson, para espirometria (28). Todos os exames foram realizados pelo mesmo técnico e no horário da manhã.

### 5.6.2 Qualidade de Vida Relacionada à Saúde (QVRS)

Para a avaliação da Qualidade de vida relacionada à saúde foi aplicado o questionário genérico PedsQLTM 4.0, validado no Brasil(26). O instrumento contempla 23 itens que compõem as seguintes dimensões: 1) dimensão física (oito itens), 2) dimensão emocional (cinco itens), 3) dimensão social (cinco itens), e 4) dimensão escolar (cinco itens). O questionário genérico PedsQLTM 4.0 é composto de formulários paralelos de autoavaliação das crianças. A avaliação das crianças utilizada na presente pesquisa incluirá as faixas etárias de 8-12 e 13-18 anos. Os itens serão referentes à avaliação do mês anterior, e os respondentes (crianças/adolescentes) utilizarão uma escala de respostas de cinco níveis (0 = nunca é um problema; 1 = quase nunca é um problema; 2 = algumas vezes é um problema; 3 = frequentemente é problema; 4 = quase sempre é um problema). O PedsQLTM será aplicado pelo entrevistador para crianças e adolescentes. Os itens serão pontuados inversamente e transpostos linearmente para uma escala de 0-100 (0 = 100, 1 = 75, 2 = 50, 3 = 25, 4 = 0); assim, quanto maior o escore, melhor a QVRS.

---

### 5.7 VIÉS

Para evitar os possíveis vieses de mensuração, todas as medidas foram realizadas pelo mesmo avaliador, seguindo os padrões estabelecidos para a realização dos exames e aplicação dos questionários. As crianças responderam o questionário na presença apenas do entrevistador e antes da consulta médica.

### 5.8 TAMANHO AMOSTRAL

Partindo de uma amostra fixa de 34 pacientes e aceitando um erro alfa de 5% e um erro beta de 20%, considerou-se significativo um coeficiente de correlação entre as médias dos questionários autorrelatados pelas crianças e pelo responsável  $>0,6$ .

### 5.9 ANÁLISE ESTATÍSTICA

A avaliação da distribuição das variáveis foi realizada mediante o teste de Kolmogorov-Smirnov. As variáveis contínuas foram apresentadas como médias e desvios padrão; as medidas categóricas, em frequências absolutas e relativas. A concordância entre o autorrelato do paciente e do responsável (Proxy) foi determinada mediante o coeficiente de correlação produto-momento de Pearson e por meio Coeficiente de correlação intraclassa (CCI). O nível de significância adotado foi de 5% ( $p < 0,05$ ). A comparação entre as médias para avaliação da diferença mínima importante foi realizada mediante o teste t. A diferença mínima importante considerada no questionário de vida PedsQI é 4 pontos(23).

As análises dos dados foram realizadas mediante o programa SPSS versão 17.0 (SPSS Inc, EUA).

---

#### 5.10 ASPECTOS ÉTICOS

Para o utilização do instrumento de pesquisa foi necessário autorizada previamente pelo autor do questionário PedsQI (25). O projeto foi aprovado pelo Comitê de Ética do HCPA. Os responsáveis assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido e as crianças manifestaram verbalmente a sua voluntariedade em participar da pesquisa, conforme sugerido pelo CEP. SIPESQ:8441

---

## 6 CONCLUSÃO

Pais dos pacientes com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa tendem a relatar escores de qualidade de vida piores que os próprios pacientes. Possíveis explicações para a discordância entre o autorrelato e o relato realizado pelo proxy é que a estrutura cognitiva da criança é diferente da do adulto(29). Os pacientes podem ter concepções diferentes em relação ao conceito da doença, suas causas e aos efeitos do tratamento.

As diferenças de entendimento podem ser pertinente, alguns autores tem defendido o uso das duas avaliações, o que propicia um quadro global do impacto da doença na qualidade de vida da criança e da família(30). No entanto, não há concordância se a análise será realizada simultaneamente ou separado, nem mesmo como será realizada a junção das duas informações.

As crianças com BOPI convivem com o envolvimento da doença desde os primeiros anos de vida o que faz com que elas aprendam a realizar suas atividades de vida diária apesar das suas limitações. O adulto que percebe as limitações dos pacientes pode mensurar de forma ampliada o comprometimento da qualidade de vida das crianças, fatores emocionais podem intervir nas respostas do proxy. Com isso pode ocorrer possível confusão entre as avaliações, o impacto causado pela doença na visão do proxy interferindo na qualidade de vida da criança do qual é diferente do autorrelato da sua própria qualidade de vida feita pela criança(5).

O presente estudo possui algumas limitações entre os escores de qualidade de vida percebida entre os proxys dos pacientes com BOPI. Nesse contexto a explicação se dará pelo fato de os familiares e os pacientes terem recebido atenção multidisciplinar no início da doença, certamente pode ter contribuído para uma melhora na qualidade de vida das crianças.

Diferentes olhares conduzem novas e diferentes condutas médicas, com essa finalidade se evidencia a importância da unificação dos relatos para buscar-se o melhor tratamento para cada paciente individualmente. Em alguns momentos os fatores emocionais interferem na avaliação do proxy, propiciando uma mudança no tratamento e poderá levar a piora do quadro clínico do paciente. O paciente tem conhecimento se está equiparada com o sentir-se melhor ou pior à resposta ao tratamento corrente (8).

---

## *Conclusão*

---

Há necessidade de comparar e avaliar o proxy com os relatos dos pacientes, para melhorar a qualidade de vida dos mesmos e conduzir o tratamento médico adequado.

---

**7 REFERÊNCIAS**

1. Castro-Rodriguez JA, Giubergia V, Fischer GB, Castanos C, Sarria EE, Gonzalez R, et al. Postinfectious bronchiolitis obliterans in children: the South American contribution. *Acta Paediatrica*. 2014;103(9):913-21.
  2. Sarria EE, et al. Qualidade de vida relacionada à saúde em pacientes com Bronquiolite Obliterante. *Jornal de Pediatria*. 2018;in press.
  3. Silva N, Crespo C, Carona C, Bullinger M, Canavarro MC. Why the (dis) agreement? Family context and child–parent perspectives on health-related quality of life and psychological problems in paediatric asthma. *Child: care, health and development*. 2015;41(1):112-21.
  4. Bodnár R, Kadar L, Szabó L, Hernadi M, Mikoczi M, Mészáros ÁA. Health related quality of life of children with chronic respiratory conditions. *Advances in Clinical and Experimental Medicine*. 2015;24(3):487-95.
  5. Matza LS, Swensen AR, Flood EM, Secnik K, Leidy NK. Assessment of health-related quality of life in children: a review of conceptual, methodological, and regulatory issues. *Value in health*. 2004;7(1):79-92.
  6. Aragão L JL, Coriolano-Marinus MWL, Sette GCS, Raposo MCF, de Britto MCA, de Lima LS. Qualidade de vida na asma brônquica—a concordância das percepções das crianças, adolescentes e seus pais. *Revista Paulista de Pediatria*. 2012;30(1):13-20.
  7. Celli BR, Decramer M, Wedzicha JA, Wilson KC, Agustí A, Criner GJ, et al. An official American Thoracic Society/European Respiratory Society statement: research questions in chronic obstructive pulmonary disease. *American journal of respiratory and critical care medicine*. 2015;191(7):e4-e27.
  8. Champs NdS, Lasmar LM, Camargos PA, Marguet C, Fischer GB, Mocelin HT. Post-infectious bronchiolitis obliterans in children. *Jornal de pediatria*. 2011;87(3):187-98.
  9. Mauad T, Dolhnikoff M. Histology of childhood bronchiolitis obliterans. *Pediatric pulmonology*. 2002;33(6):466-74.
  10. Sherifali D, Pinelli J. Parent as proxy reporting: implications and recommendations for quality of life research. *Journal of Family Nursing*. 2007;13(1):83-98.
  11. Wu P-Q, Li X, Jiang W-H, Yin G-Q, Lei A-H, Xiao Q, et al. Hypoxemia is an independent predictor of bronchiolitis obliterans following respiratory adenoviral infection in children. *SpringerPlus*. 2016;5(1):1622.
  12. Smyth RL, Openshaw PJ. Bronchiolitis. *The lancet*. 2006;368(9532):312-22.
-

13. Mattiello R, Vidal PC, Sarria EE, Pitrez PM, Stein RT, Mocelin HT, et al. Evaluating bronchodilator response in pediatric patients with post-infectious bronchiolitis obliterans: use of different criteria for identifying airway reversibility. *Jornal Brasileiro de Pneumologia*. 2016;42(3):174-8.
  14. Vieira GdD, Yamagishi AY, Vieira NN, Fogaça RMMD, Alves TdC, Amaral GMBG, et al. Complication of post-infectious bronchiolitis obliterans (Swyer-James syndrome). *Revista da Associação Médica Brasileira*. 2015;61(5):404-6.
  15. Vega-Briceño LE, Zenteno D. Guía clínica para el diagnóstico y cuidado de niños/adolescentes con bronquiolitis obliterante post-infecciosa, 2009. *Revista chilena de enfermedades respiratorias*. 2009;25(3):141-63.
  16. Mattiello R, Sarria EE, Stein R, Fischer GB, Mocelin HT, Barreto SSM, et al. Functional capacity assessment during exercise in children and adolescents with post-infectious bronchiolitis obliterans. *Jornal de Pediatria*. 2008;84(4):337-43.
  17. Colom AJ, Teper AM, Vollmer WM, Diette GB. Risk factors for the development of bronchiolitis obliterans in children with bronchiolitis. *Thorax*. 2006;61(6):503-6.
  18. Eiser C, Varni JW. Health-related quality of life and symptom reporting: similarities and differences between children and their parents. *European journal of pediatrics*. 2013;172(10):1299-304.
  19. Quittner AL, Marciel KK, Salathe MA, O'donnell AE, Gotfried MH, Ilowite JS, et al. A preliminary quality of life questionnaire-bronchiectasis: a patient-reported outcome measure for bronchiectasis. *Chest*. 2014;146(2):437-48.
  20. Sarria EE, Rosa RCM, Fischer GB, Hirakata VN, da Rocha NS, Mattiello R. Versão brasileira do Paediatric Asthma Quality of Life Questionnaire: validação de campo. *J Bras pneumol*. 2010;36(4):417-24.
  21. Juniper EF, Guyatt GH, Feeny DH, Ferrie P, Griffith LE, Townsend M. Measuring quality of life in children with asthma. *Quality of life research*. 1996;5(1):35-46.
  22. Khoshkhui M, Jafari P, Afrasiabi M, Orooj M, Kashef S. Level of Agreement between Children with Asthma and their Parents on Quality of Life. *Iranian journal of medical sciences*. 2016;41(2):86.
  23. Roncada C, Mattiello R, M Pitrez P, E Sarria E. Specific instruments to assess quality of life in children and adolescents with asthma. *Jornal de Pediatria*. 2013;89(3):217-25.
  24. Carr AJ, Gibson B, Robinson PG. Measuring quality of life: Is quality of life determined by expectations or experience? *BMJ*. 2001;322(7296):1240-3.
  25. Hardy KA, Schidlow DV, Zaeri N. Obliterative bronchiolitis in children. *Chest*. 1988;93(3):460-6.
  26. Klatchoian DA, Len CA, Terreri MTR, Silva M, Itamoto C, Ciconelli RM, et al. Quality of life of children and adolescents from São Paulo: reliability and validity of
-

- the Brazilian version of the Pediatric Quality of Life Inventory™ version 4.0 Generic Core Scales. *Jornal de pediatria*. 2008;84(4):308-15.
27. Miller MR, Hankinson J, Brusasco V, Burgos F, Casaburi R, Coates A, et al. Standardisation of spirometry. *European respiratory journal*. 2005;26(2):319-38.
28. Knudson RJ, Lebowitz MD, Holberg CJ, Burrows B. Changes in the normal maximal expiratory flow-volume curve with growth and aging. *American Review of Respiratory Disease*. 1983;127(6):725-34.
29. Bibace R, Walsh ME. Development of children's concepts of illness. *Pediatrics*. 1980;66(6):912-7.
30. Eiser C, Morse R. Can parents rate their child's health-related quality of life? Results of a systematic review. *Quality of life research*. 2001;10(4):347-57.
-



**ANEXOS**

---

**ANEXO 1 - QUESTIONÁRIO PEDIÁTRICO SOBRE QUALIDADE DE VIDA**

Nº de identificação: \_\_\_\_\_

Data: \_\_\_\_\_

# **PedsQL™**

## **Questionário pediátrico sobre qualidade de vida**

Versão 4.0 – Português (Brasil)

**RELATO DA CRIANÇA (8 a 12 anos)****INSTRUÇÕES**

A próxima página contém uma lista de coisas com as quais  **você**  pode ter dificuldade.

Por favor, conte-nos se  **você tem tido dificuldade**  com cada uma dessas coisas durante o  **ÚLTIMO MÊS** , fazendo um "X" no número:

- 0** se você  **nunca**  tem dificuldade com isso
- 1** se você  **quase nunca**  tem dificuldade com isso
- 2** se você  **algumas vezes**  tem dificuldade com isso
- 3** se você  **muitas vezes**  tem dificuldade com isso
- 4** se você  **quase sempre**  tem dificuldade com isso

Não existem respostas certas ou erradas.

Caso você não entenda alguma pergunta, por favor, peça ajuda.

## Anexo 1 - Questionário Pediátrico sobre Qualidade de Vida

PedsQL 2

Durante o **ÚLTIMO MÊS**, você tem tido **dificuldade** com cada uma das coisas abaixo?

| <b>SOBRE MINHA SAÚDE E MINHAS ATIVIDADES (dificuldade para...)</b>     | Nunca | Quase nunca | Algumas vezes | Muitas vezes | Quase sempre |
|--|-------|-------------|---------------|--------------|--------------|
| 1. Para mim é difícil andar mais de um quarteirão                      | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 2. Para mim é difícil correr   | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 3. Para mim é difícil praticar esportes ou fazer exercícios físicos    | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 4. Para mim é difícil levantar coisas pesadas                          | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 5. Para mim é difícil tomar banho de banheira ou de chuveiro sozinho/a | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 6. Para mim é difícil ajudar nas tarefas domésticas                    | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 7. Eu sinto dor  | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 8. Eu tenho pouca energia ou disposição                                | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |

| <b>SOBRE MEUS SENTIMENTOS (dificuldade para...)</b> | Nunca | Quase nunca | Algumas vezes | Muitas vezes | Quase sempre |
|---|-------|-------------|---------------|--------------|--------------|
| 1. Eu sinto medo                                    | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 2. Eu me sinto triste                               | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 3. Eu sinto raiva                                   | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 4. Eu durmo mal                                     | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 5. Eu me preocupo com o que vai acontecer comigo    | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |

| <b>COMO EU CONVIVO COM OUTRAS PESSOAS (dificuldades para...)</b>                     | Nunca | Quase nunca | Algumas vezes | Muitas vezes | Quase sempre |
|--|-------|-------------|---------------|--------------|--------------|
| 1. Eu tenho dificuldade para conviver com outros / outras adolescentes               | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 2. Os outros / as outras adolescentes não querem ser meus amigos / minhas amigas     | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 3. Os outros / as outras adolescentes implicam comigo                                | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 4. Eu não consigo fazer coisas que outros / outras adolescentes da minha idade fazem | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 5. Para mim é difícil acompanhar os / as adolescentes da minha idade                 | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |

| <b>SOBRE A ESCOLA (dificuldades para...)</b>                                | Nunca | Quase nunca | Algumas vezes | Muitas vezes | Quase sempre |
|---|-------|-------------|---------------|--------------|--------------|
| 1. É difícil prestar atenção na aula  | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 2. Eu esqueço as coisas   | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 3. Eu tenho dificuldade para acompanhar a minha turma nas tarefas escolares | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 4. Eu falto à aula por não estar me sentindo bem                            | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |
| 5. Eu falto à aula para ir ao médico ou ao hospital                         | 0     | 1           | 2             | 3            | 4            |

*Anexo 2 - Avaliação da Qualidade de Vida em Crianças com Asma*

**ANEXO 2 - AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA EM CRIANÇA COM ASMA**

**Avaliação da Qualidade de Vida  
em Crianças com Asma**

|  |  |
|--|--|
| Prontuário: _____<br><input type="checkbox"/> HCSA <input type="checkbox"/> HMIP V         | Q1 - Data: ___ / ___ / ____<br>Q2 - Data: ___ / ___ / ____ |
| Idade em meses _____   | Idade: _____ anos  |
| <b>Dados da Criança</b>  |  |
| Nome: _____  | Data Nascimento: ___ / ___ / ____                          |
| Endereço: _____  |  |
| Telefone(s) de contato: _____ / _____ / _____  |  |
| Escolaridade (anos completos): _____   |  |
| Classificação da Asma: _____   | Tempo de acompanhamento: _____                             |
| Idade do diagnóstico: _____  | Medicação em Uso _____                                     |
| Q1 – Escore nas 2 consultas prévias ou nos últimos 4 meses: _____                          |  |
| <b>Exame Físico 1</b>  |  |
| Peso (percentil): _____ ( _____ ) IMC: _____ ( _____ ) Altura (percentil): _____ ( _____ ) |  |
| Escore Clínico da Asma último mês: _____   |  |
| Espirometria: CVF _____ ( _____ ) VEF1 _____ ( _____ ) CVF1% _____ ( _____ )               |  |
| PEF _____ ( _____ ) FEF25-75 _____ ( _____ )   |  |
| Aceitabilidade: (1) Completa (2) Só VEF1 (3) Inaceitável (4) NR                            |  |
| Laudo: Normal ( ) DVO ( ) DVR ( ) DVM ( ) Resposta ao BD: (1) _____ % (2) NA               |  |
| <hr/>  |  |
| <b>Exame Físico 2</b>  |  |
| Peso (percentil): _____ ( _____ ) Altura (percentil): _____ ( _____ )                      |  |
| Escore Clínico da Asma último mês: _____   |  |
| Espirometria: CVF _____ ( _____ ) VEF1 _____ ( _____ ) CVF1% _____ ( _____ )               |  |
| PEF _____ ( _____ ) FEF25-75 _____ ( _____ )   |  |
| Aceitabilidade: (1) Completa (2) Só VEF1 (3) Inaceitável (4) NR                            |  |
| Laudo: Normal ( ) DVO ( ) DVR ( ) DVM ( ) Resposta ao BD: (1) _____ % (2) NA               |  |
| <hr/>  |  |
| <b>Dados do Adulto / Família</b>   |  |
| Nome: _____ Fumantes na casa: Sim ( ) Não ( )  |  |
| Idade: _____ Grau de parentesco: _____   |  |
| Escolaridade (Anos completos): _____   |  |
| Renda familiar (aprox): R\$ _____ ( _____ salários mínimos)                                |  |
| N° de quartos no domicílio: _____ N° de moradores: _____                                   |  |
| Marpan: _____ A ( ) B ( ) C ( ) D ( )  |  |

|                              |                                  |
|------------------------------|----------------------------------|
| <b>Escore Clínico</b>        |                                  |
| +1: Estável c/ medicação     |                                  |
| -1: Crise – Só precisou B2cd | -3: Crise – Precisou Visitar EMG |
| -2: Crise – B2 e Cortic Oral | -4: Crise – Internou             |

## ANEXO 3 - APROVAÇÃO DO CEP

 **HCPA - HOSPITAL DE CLÍNICAS DE PORTO ALEGRE**  
**Grupo de Pesquisa e Pós-Graduação**  
COMISSÃO CIENTÍFICA E COMISSÃO DE PESQUISA E ÉTICA EM SAÚDE

A Comissão Científica e a Comissão de Pesquisa e Ética em Saúde, que é reconhecida pela Comissão Nacional de Ética em Pesquisa (CONEP)/MS como Comitê de Ética em Pesquisa do HCPA e pelo Office For Human Research Protections (OHRP)/USDHHS, como Institutional Review Board (IRB0000921) analisaram o projeto:

**Projeto:** 06-492      **Versão do Projeto:** 09/11/2006      **Versão do TCLE:** 14/11/2006

**Pesquisadores:**  
GILBERTO BUENO FISCHER  
RITA MATTIELLO  
SERGIO SALDANHA MENNA BARRETO  
RICARDO STEIN  
EDGAR ENRIQUE SARRIA ICAZA

**Título:** AVALIAÇÃO CARDIORRESPIRATÓRIA EM CRIANÇAS COM BRONQUIOLITE OBLITERANTE PÓS-VIRAL

Este projeto foi Aprovado em seus aspectos éticos e metodológicos, inclusive quanto ao seu Termo de Consentimento Livre e Esclarecido, de acordo com as Diretrizes e Normas Internacionais e Nacionais, especialmente as Resoluções 196/96 e complementares do Conselho Nacional de Saúde. Os membros do CEP/HCPA não participaram do processo de avaliação dos projetos onde constam como pesquisadores. Toda e qualquer alteração do Projeto, assim como os eventos adversos graves, deverão ser comunicados imediatamente ao CEP/HCPA. Somente poderão ser utilizados os Termos de Consentimento onde conste a aprovação do GPPG/HCPA.

Porto Alegre, 14 de novembro de 2006.

  
Prof. Nadine Clausell  
Coordenadora do GPPG e CEP-HCPA

**ANEXO 4 - APROVAÇÃO DO SIPESQ**

---



**SIPESQ**  
Sistema de Pesquisas da PUCRS

---

Código SIPESQ: 8441

Porto Alegre, 27 de novembro de 2017.

Prezado(a) Pesquisador(a),

A Comissão Científica da ESCOLA DE MEDICINA da PUCRS apreciou e aprovou o Projeto de Pesquisa "AVALIAÇÃO DA CONCORDÂNCIA ENTRE O AUTORRELATO DA CRIANÇA E DO PROXY NA AVALIAÇÃO DA QUALIDADE DE VIDA À SAÚDE EM PACIENTES COM BRONQUIOLITE OBLITERANTE".

Atenciosamente,

Comissão Científica da ESCOLA DE MEDICINA

---

**APÉNDICE**

---

**APÊNDICE 1- ARTIGO ORIGINAL**

Artigo aceito para o Jornal de Pediatria.

**Agreement of Health-Related Quality of Life between Child and the Parent****Proxy of the quality of life in Bronchiolitis**

Marcia H. R. de F. Arend; Estudante de mestrado na Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul (PUCRS), Porto Alegre, Brasil; marciaarend@hotmail.com; Currículo Lattes: <http://lattes.cnpq.br/3357341883599721>.

Rita Mattiello; Professora adjunta da Escola de Medicina da Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul (PUCRS), Porto Alegre, Brasil; rita.mattiello@pucrs.br; Currículo Lattes: <http://lattes.cnpq.br/4920515067971772>.

Contribuição dos autores: todos os autores contribuíram para a produção do projeto de pesquisa, coleta e análise de dados, produção do artigo e revisão da versão final do manuscrito.

Conflito de interesse: nada a declarar.

Instituição vinculada: Escola de Medicina e Programa de Pós-Graduação em Pediatria e Saúde da Criança da Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul (PUCRS); Programa de Pós-Graduação em Epidemiologia da Universidade Federal do Rio Grande do Sul (UFRGS); Departamento de Pediatria e Puericultura da Universidade Federal de Ciências da Saúde de Porto Alegre; Departamento de Psicologia e Psiquiatria da Universidade de Montreal Concordia e Pesquisadora da Universidade de Montreal.

Autora para correspondência e contato pré-publicação: Rita Mattiello, Avenida Ipiranga, 6681 - Prédio 60 - sala da pós-graduação em Pediatria, CEP: 90619900, Porto Alegre, Rio Grande do Sul, Telefone: (51) 3320.3350, E-mail: rita.mattiello@pucrs.br.

Fontes financiadoras: CAPES, CNPq e Fapergs auxiliaram nas bolsas de estudos dos pós-graduandos.

Contagem total de palavras do texto: 2556 palavras.

Contagem total das palavras do resumo: 233 palavras.

---



Número de tabelas e figuras: 2 tabelas.

**Resumo**

Objetivo: Avaliar o nível de concordância da Qualidade de Vida Relacionada à Saúde (QVRS) entre crianças com Bronquiolite Obliterante Pós-infecciosa (BOPI) e seus pais (proxy).

Métodos: Participantes com idade entre 8-17 anos, previamente diagnosticados com BOPI, foram acompanhados regularmente em ambulatórios especializados de pneumologia pediátrica. Os pais ou os representantes legais (cuidadores) destes pacientes também foram recrutados para o estudo. Para a avaliação da QVRS foi aplicada a versão validada do instrumento Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 (PedsQL). Os cuidadores responderam a versão correspondente do questionário para proxys. A correlação dos relatos da QVRS entre as crianças e seus proxy foi determinada através do coeficiente de correlação intraclasse (CCI) e teste t para amostras independentes.

Resultados: A maioria dos participantes era do sexo masculino (79,4%) e a média de idade foi de 11,8 anos. Os CCI entre cada um dos domínios do PedsQL, bem como o escore total foram inferiores a 0,6, variando entre 0,267 (pobre) e 0,530 (satisfatória). As médias dos domínios e do escore total dos questionários respondidos pelos pacientes e aquelas relatadas pelos responsáveis foram comparadas, tendo se observando que o escore dos cuidadores foi significativamente menor do que o das crianças, com exceção apenas para o domínio social, cuja diferença não foi significativa. Todavia, as diferenças ultrapassaram a diferença mínima importante de 4 pontos no escore para todos os domínios.

---

Conclusão: Os proxys de crianças e adolescentes com BOPI parecem perceber consistentemente que a QVRS das crianças é menor do que a percebida pelos próprios pacientes.

Descritores: Qualidade de vida relacionada à saúde, Bronquiolite Obliterante, Crianças

### **Abstract**

Objective: To assess the level of agreement in health-related quality of life (HRQoL) between children with Post Infectious Bronchiolitis Obliterans (PIBO) and their parent (so-called proxy).

Methods: Participants aged between 8–17 years, which had been previously diagnosed with PIBO, were regularly followed up at a pediatric pulmonology outpatient clinic. Parents or legal guardians (caregivers) of these patients were also recruited for the study. A validated and age-appropriate version of the Pediatric Quality of Life Inventory 4.0 (PedsQL) was used for the assessment of HRQoL. Caregivers completed the corresponding proxy versions of the questionnaire. The correlation between self and proxy reports of HRQoL was determined by intra-class correlation coefficient (ICC), and dependent t-tests.

Results: The majority of the participants were males (79.4%), and the average age was 11.8 years. Intra-class correlations between each of the PedsQL domains and the total score were all lower than 0.6, with a range between 0.267 (poor) and 0.530 (fair). When the means of each domain and the total score of the questionnaires were compared, caregivers were

---

observed to score significantly lower HRQoL than children, with the exception of the social domain in which the difference was not significant. However, the differences in score exceeded the critical threshold difference of 4 points in all other domains.

Conclusion: Proxy of children and adolescents with PIBO appear to consistently perceive their children to have lower HRQoL than how the patients perceive themselves.

Keywords: Health-Related Quality of Life, Bronchiolitis Obliterans, Children Agreement of Health-Related Quality of Life between Child and the Parent

Proxy of the quality of life in Bronchiolitis

## **Introduction**

Post-infectious Bronchiolitis Obliterans (PIBO) is an uncommon and severe respiratory disease characterized by chronic obstruction of the small airways.<sup>1-9</sup> As a result, it has expected negative impacts on daily-life functions and overall quality of life.

In an attempt to understand the extent of this impact, we recently reported that children and adolescents with PIBO had lower scores of health-related quality of life (HRQoL) than healthy individuals in both physical as well as school domains.<sup>10</sup> An important part of managing chronic pediatric conditions is control of symptoms and the promotion of

---

the proper psycho-social development of patients.<sup>11</sup> Assessment of the latter by measuring the objective outcome is more complex than the former. Therefore, the use of subjective measures, such as patient-reported outcome (PRO), should be encouraged in clinical practice as key complementary tools for the care of both adult and pediatric patients with chronic disease.

When a patient is not able to respond to questions or express his/her own opinion due to cognitive limitations, a person familiar with the patient, having knowledge of the health problem that the patient has, can be an appropriate source of information. This individual is known as a proxy and is typically the spouse or a close family member who knows the patient well. Proxy assessments are generally used in research or clinical care of individuals who are very young, very old, and/or severely ill.<sup>12</sup> The use of proxies, however, is also common in children with chronic conditions, raising some questions and debate on how parents and their children should agree on the assessment of the children's HRQoL by both.

In an ideal scenario, children and proxies participate together in the decision-making process regarding the management of the disease. As differences in perception of patients' HRQoL could influence intervention, it would be vital for clinicians to understand the basis and importance of such differences while counseling families. Differences in HRQoL between groups could be attributed to interventions when, in fact, they were due to reporting differences.<sup>13</sup>

Despite the severity of PIBO and its effect on the patient's quality of life, studies evaluating the agreement in the assessment of health-related

---

quality of life (HRQoL) between children and their proxies have not yet been published.<sup>14</sup>

Thus, the objective of this study was to evaluate the agreement between self-reports and proxy reports of HRQoL in children with PIBO.

## **Methods**

We included both, children or adolescent patients with PIBO aged between 8–17 years and in follow-up at a pediatric pulmonology clinic in southern Brazil, and their parents or legal guardians (proxy). The criteria for the diagnosis of PIBO has been previously described.<sup>15</sup> It was basically based on the association of the following clinical, radiological, and functional criteria: 1) history of acute lung infection in a previously healthy child; 2) chronic breathing problems beyond four weeks of the initial event; 3) high resolution computed tomography with common findings in PIBO, such as mosaic pattern, bronchiectasis, and atelectasis; 4) lung function tests indicating significant airflow limitation; and 5) exclusion of other chronic lung diseases, such as Severe Asthma, Cystic Fibrosis, Alpha-1-antitrypsin deficiency, and immune deficiencies.

### Lung Function

In order to categorize the functional impairment, lung function was assessed by spirometry, according to the *American Thoracic Society* criteria for acceptability and reproducibility.<sup>2</sup> Spirometry was performed using

---

Master-Screen equipment (Jaeger, Germany), and spirometry results were expressed as percentages of predicted values from Knudson's reference values.<sup>16</sup>

HRQoL was assessed using the Pediatric Quality of Life Inventory version 4.0 (PedsQL) generic core scale, which had been validated in Brazil in earlier studies.<sup>17,18</sup> The instrument included 23 items comprising domains: physical (eight items), emotional (five items), social (five items), and scholar (five items). We used both patient and proxy versions for children and their parents, respectively, with age-appropriate options for children aged 8–12 and 13–18 years. The items in each of the versions were essentially similar and differed only in terms of age-adjusted language and the use by either the patients themselves or their proxies. The scale and its domains referred to the perception of events and feelings in the previous month. Survey respondents answered using a five-point Likert scale, ranging from 0 (never a problem) to 4 (almost always a problem). To eliminate discrepancy due to potential reading difficulties, the PedsQL was applied through the interview.<sup>18</sup> Following the scale's instructions, items were scored inversely and transposed linearly on a scale of 0–100 (0 = 100, 1 = 75, 2 = 50, 3 = 25, 4 = 0). Thus, higher scores indicated better HRQoL. Two previously trained interviewers applied all questionnaires. Children and their proxies were interviewed separately from another.

---

### Sample Size

With one observation for child and the parent, and assuming the probability of a type 1 error of 5%, the probability of a type 2 (1-beta) error of 10%, an intraclass correlation coefficient of 0.7, 95% confidence interval, and required lower limit of not less than 0.3, the required sample size is 29 participants in each group (child and parent).

### Statistical analysis

Variable distribution was assessed using the Kolmogorov-Smirnov test. The values of means and standard deviations represented the continuous variables, while absolute and relative frequencies represented the categorical measures. The agreement between self and proxy-report was determined intra-class correlation coefficient (ICC), and dependent *t*-test. The level of significance was set at 5% ( $p < 0.05$ ). For the evaluation of the critical threshold difference, the means of the groups were compared using the *t*-test. The critical threshold difference was considered at 4 points<sup>18</sup>.

Data analyses were performed using SPSS software version 17.0 (SPSS Inc, EUA). The use of the research instrument PedsQL had been previously authorized by the author of the questionnaire.<sup>19</sup> The project was approved by the Institutional Research Ethics Committee, and participants provided written consent prior to participation.

---

## **Results**

The mean age of the patients was  $11.8 \pm 2.6$  years and most of the participants were males (79.4%). Lung function showed patterns of a severely obstructive airway disease, typical in children with PIBO (Table 1).

When PedsQL results from the children were compared with their proxy, children generally scored significantly better than their parents, both in terms of the total score and individually on most domains of the scale. In other words, parents considered their children to have a lower HRQoL than that evaluated by the patients themselves. The only exception was the social domain of the scale, where differences between patients and proxy were not significant (Table 2). However, all the differences were clinically relevant ( $>4$  points).

Intra-class correlations between each of the PedsQL domains and the total score were all lower than 0.6, with a range between 0.267 and 0.530.

## **Discussion**

This study showed that patients with PIBO reported having a better quality of life than what their proxies perceived. As in other cases, particularly in chronic diseases, parents tend to assume the worse quality of life of their children, than how patients assess themselves.<sup>13,20,21</sup>

A possible explanation for the lack of agreement, from a more conservative point of view, is that a child's cognitive internal structure is different from that of the adult.<sup>22</sup> Children, therefore, could have a different

---



understanding of the disease, its causes, expected natural history, and expected efficacy of the treatment. Another possible explanation is resilience and adaptation of children with PIBO; they have lived with the disease since very early in life, and they may have learned to adapt and carry out their daily activities in spite of their limitations. This inevitable situation probably led the children to accept the disease as a natural part of their being and have influenced their perception (a much more optimistic one) of what is considered to be “normal”, compared to their parents. This is in line to the mismatch hypothesis, that states that individuals who experience aversive situations early in life trigger adaptative processes, thereby rendering an individual to be better adapted to aversive challenges later in life.<sup>23</sup> Another crucial factor worth mentioning is that being a caregiver (or proxy) of a child with a chronic and severe disease like PIBO often leads to high levels of anxiety and feelings of hopelessness, which in turn affects the parents’ own quality of life.<sup>24-26</sup> A causal relation between interpretation bias and anxiety has been documented,<sup>27</sup> and it can predispose parents to distort negatively their perceptions about their children.

One limitation of our study could be that we neither assessed the parents’ own HRQoL, nor the emotional impact of their children’s chronic disease on them. High emotional impact and/or low HRQoL could negatively influence their responses to how they perceived their children’s HRQoL.

In conclusion, our study found that the assessment of HRQoL in children with PIBO differs between the patients themselves and their proxies.

---

**Acknowledgments**

We thank the parents and patients for participating in this study.

---

**References**

1. Castro-Rodriguez JA, Giubergia V, Fischer GB, Castaños C, Sarria EE, Gonzalez R, et al. Postinfectious bronchiolitis obliterans in children: the South American contribution. *Acta Paediatr* [Internet]. 2014 Sep [cited 2017 Jul 9];103(9):913–21. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1111/apa.12689>
  2. Celli BR, Decramer M, Wedzicha JA, Wilson KC, Agustí AA, Criner GJ, et al. An official American Thoracic Society/European Respiratory Society statement: research questions in COPD. *Eur Respir Rev* [Internet]. 2015 Jun 1 [cited 2017 Jul 9];24(136):159–72. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/25830527>
  3. Quittner AL, Marciel KK, Salathe MA, O'Donnell AE, Gotfried MH, Ilowite JS, et al. A preliminary quality of life questionnaire-bronchiectasis: a patient-reported outcome measure for bronchiectasis. *Chest* [Internet]. 2014 Aug;146(2):437–48. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/24626872>
  4. Sherifali D, Pinelli J. Parent as proxy reporting: implications and recommendations for quality of life research. *J Fam Nurs* [Internet]. 2007 Feb;13(1):83–98. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17220383>
  5. Anguita JC, Repullo Labrador JR, Candel JP. Medidas de calidad de vida relacionada con la salud. Conceptos básicos, construcción y adaptación cultural. *Med Clin (Barc)* [Internet]. 2001 Jan;116(20):789–96. Available from: <http://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S0025775301719872>
  6. Cazzato S, Poletti V, Bernardi F, Laroni L, Bertelli L, Colonna S, et al. Airway inflammation and lung function decline in childhood post-infectious bronchiolitis obliterans. *Pediatr Pulmonol*. 2008;
  7. Mattiello R, Sarria EE, Mallol J, Fischer GB, Mocelin H, Bello R, et al. Post-infectious bronchiolitis obliterans: Can CT scan findings at early age anticipate lung function? *Pediatr Pulmonol*. 2010;45(4):315–9.
  8. Mauad T, Dolhnikoff M. Histology of childhood bronchiolitis obliterans. *Pediatr Pulmonol*. 2002;
  9. Kurland G, Michelson P. Bronchiolitis obliterans in children. Vol. 39, *Pediatric Pulmonology*. 2005. p. 193–208.
  10. Sarria EE, Mundstock E, Machado DG, Mocelin HT, Fischer GB, Furlan SP, et al. Qualidade de vida relacionada à saúde em pacientes com Bronquiolite Obliterante. *J Pediatr (Rio J)*. 2018;in press.
  11. Silva N, Crespo C, Carona C, Bullinger M, Canavarro MC. Why the (dis)agreement? Family context and child-parent perspectives on
-

- health-related quality of life and psychological problems in paediatric asthma. *Child Care Health Dev* [Internet]. 2015 Jan;41(1):112–21. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/24797724>
12. Fayers PM, Machin D. *Quality of Life* [Internet]. Chichester, UK: John Wiley & Sons, Ltd; 2007. Available from: <http://doi.wiley.com/10.1002/9780470024522>
  13. Britto MT, Kotagal UR, Chenier T, Tsevat J, Atherton HD, Wilmott RW. Differences between Adolescents' and Parents' Reports of Health-Related Quality of Life in Cystic Fibrosis. *Pediatr Pulmonol*. 2004;37(2):165–71.
  14. Aragão L JL, Coriolano-Marinus MWL, Sette GCS, Raposo MCF, Britto MCA de, Lima LS de. Qualidade de vida na asma brônquica: a concordância das percepções das crianças, adolescentes e seus pais. *Rev Paul Pediatr* [Internet]. 2012 [cited 2017 Oct 18];30(1):13–20. Available from: [http://www.scielo.br/scielo.php?script=sci\\_arttext&pid=S0103-05822012000100003&lng=pt&tlng=pt](http://www.scielo.br/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0103-05822012000100003&lng=pt&tlng=pt)
  15. Murtagh P, Giubergia V, Viale D, Bauer G, Pena HG. Lower respiratory infections by adenovirus in children. Clinical features and risk factors for bronchiolitis obliterans and mortality. *Pediatr Pulmonol* [Internet]. 2009 May;44(5):450–6. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19360848>
  16. Knudson RJ, Lebowitz MD, Holberg CJ, Burrows B. Changes in the normal maximal expiratory flow-volume curve with growth and aging. *Am Rev Respir Dis* [Internet]. 1983 Jun [cited 2017 Jul 10];127(6):725–34. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/6859656>
  17. Sarria EE, Rosa RCM, Fischer GB, Hirakata VN, Rocha NS da, Mattiello R. Field-test validation of the brazilian version of the Paediatric Asthma Quality of Life Questionnaire. *J Bras Pneumol* [Internet]. 2010 Aug;36(4):417–24. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/20835587>
  18. Klatchoian DA, Len CA, Terreri MTRA, Silva M, Itamoto C, Ciconelli RM, et al. Qualidade de vida de crianças e adolescentes de São Paulo: confiabilidade e validade da versão brasileira do questionário genérico Pediatric Quality of Life Inventory™ versão 4.0. *J Pediatr (Rio J)*. 2008;84:308–15.
  19. Hardy KA, Schidlow D V., Zaeri N. Obliterative bronchiolitis in children. *Chest* [Internet]. 1988 Mar;93(3):460–6. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3342654>
  20. Fischer GB, Sarria EE, Mattiello R, Mocelin HT, Castro-Rodriguez JA. Post Infectious Bronchiolitis Obliterans in Children. Vol. 11, *Paediatric*
-

- Respiratory Reviews. 2010. p. 233–9.
21. Ramstad K, Jahnsen R, Skjeldal OH, Diseth TH. Mental health, health related quality of life and recurrent musculoskeletal pain in children with cerebral palsy 8-18 years old. *Disabil Rehabil*. 2012;34(19):1589–95.
  22. Bibace R, Walsh ME. Development of children's concepts of illness. *Pediatrics* [Internet]. 1980;66(6):912–7. Available from: <http://pediatrics.aappublications.org/content/66/6/912.abstract>
  23. Nederhof E, Schmidt M V. Mismatch or cumulative stress: Toward an integrated hypothesis of programming effects. *Physiol Behav* [Internet]. 2012;106(5):701–6. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.physbeh.2011.12.008>
  24. Matza LS, Swensen AR, Flood EM, Secnik K, Leidy NK. Assessment of health-related quality of life in children: a review of conceptual, methodological, and regulatory issues. *Value Health* [Internet]. 2004;7(1):79–92. Available from: <http://dx.doi.org/10.1111/j.1524-4733.2004.71273.x>
  25. Eiser C, Morse R. Can parents rate their child's health-related quality of life? Results of a systematic review. *Qual Life Res* [Internet]. 2001;10(4):347–57. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11763247>
  26. Champs NS, Lasmar LMLBF, Camargos PAM, Marguet C, Fischer GB, Mocelin HT. Post-infectious bronchiolitis obliterans in children. *J Pediatr (Rio J)* [Internet]. 2011 May 5;87(3):187–98. Available from: [http://jped.com.br/conteudo/Ing\\_resumo.asp?varArtigo=2188&cod=&idSecao=1](http://jped.com.br/conteudo/Ing_resumo.asp?varArtigo=2188&cod=&idSecao=1)
  27. Van Bockstaele B, Verschuere B, Tibboel H, De Houwer J, Crombez G, Koster EHW. A review of current evidence for the causal impact of attentional bias on fear and anxiety. *Psychol Bull*. 2014;140(3):682–721.
-

Table 1. Characterization of children and adolescents diagnosed with BOPI

| Variables   | Participants (n= 34) |
|---|----------------------|
| Demographics  |                      |
| Male, n (%)   | 27 (79.4)            |
| Age (years), mean (SD)  | 11.8 (2.6)           |
| Lung function   |                      |
| Forced vital capacity (Percentage of predicted), mean (SD)                | 69.4 (15.3)          |
| Forced expiratory volume in 1 second (Percentage of predicted), mean (SD) | 53.3 (19.5)          |
| Forced expiratory flow 25–75% (Percentage of predicted), mean (SD)        | 26.6 (16.9)          |
| Tiffeneau (Index), mean (SD)  | 0.6 (0.1)            |

SD: Standard deviation

Table 2. Differences in the domains and the total self-reported score by children and parents

| Domains                 | Parents     | Children    | Difference (%) | p-value |
|-------------------------|-------------|-------------|----------------|---------|
| Health, mean (SD)       | 72.4 (15.7) | 81.0 (12.3) | -8.4 (18.8)    | 0.017*  |
| Emotional, mean (SD)    | 61.2 (22.1) | 78.7 (17.7) | -17.2 (22.1)   | <0.01*  |
| Social, mean (SD)       | 80.5 (19.5) | 87.5 (14.7) | -6.6 (22.6)    | 0.111   |
| School, mean (SD)       | 62.3 (20.3) | 79.0 (14.6) | -16.4 (19.6)   | <0.01*  |
| Psychosocial, mean (SD) | 70.8 (17.2) | 83.1 (14.1) | -11.8 (18.5)   | <0.01*  |
| Total, mean (SD)        | 69.4 (15.4) | 81.8 (11.8) | -12.9 (15.7)   | <0.01*  |

\*T-test for paired samples  $P < 0.05$

SD: Standard deviation



Pontifícia Universidade Católica do Rio Grande do Sul  
Pró-Reitoria Acadêmica  
Av. Ipiranga, 6681 - Prédio 1 - 3º andar  
Porto Alegre - RS - Brasil  
Fone: (51) 3320-3500 - Fax: (51) 3339-1564  
E-mail: [proacad@pucrs.br](mailto:proacad@pucrs.br)  
Site: [www.pucrs.br/proacad](http://www.pucrs.br/proacad)

---