

## **“I have got something positive out of this situation”: psychological benefits of caregiving in relatives of young people with muscular dystrophy**

Lorenza Magliano · Melania Patalano · Alessandra Sagliocchi · Marianna Scutifero · Antonella Zaccaro · Maria Grazia D’Angelo · Federica Civati · Erika Brighina · Giuseppe Vita · Gian Luca Vita · Sonia Messina · Maria Sframeli · Marika Pane · Maria Elena Lombardo · Roberta Scalise · Adele D’Amico · Giulia Colia · Michela Catteruccia · Umberto Balottin · Angela Berardinelli · Maria Chiara Motta · Corrado Angelini · Alessandra Gaiani · Claudio Semplicini · Luca Bello · Roberta Battini · Guja Astrea · Giulia Ricci · Luisa Politano

### **“ Ho ottenuto qualcosa di positivo da questa situazione” : benefici psicologici nei familiari che si occupano di giovani persone con distrofia muscolare.**

**Magliano L e coll.**

Questo articolo si concentra sui benefici psicologici (caregiving-carico familiare) nei familiari-chiave nella cura di pazienti con distrofia muscolare (DM), un gruppo di malattie rare caratterizzate da debolezza progressiva e limitazioni delle abilità funzionali. Abbiamo descritto se il carico familiare percepito dai parenti può essere un’esperienza positiva e valutato se le loro percezioni variano in relazione a: la loro opinione del paziente considerato come una persona stimata, il livello di coinvolgimento nella cura e il livello di supporto fornito dalla rete sociale e professionale. Il campione comprende 502 “familiari chiave” di età tra i 18 e gli 80 anni, di pazienti di età tra i 4 e i 18 anni, affetti da Distrofia muscolare di Duchenne, Distrofia muscolare di Becker e Distrofia muscolare dei cingoli, in carico da almeno sei mesi in uno degli otto centri coinvolti nello studio. Dei familiari-chiave: l’88% ha dichiarato che avevano ottenuto qualcosa di positivo su questa situazione, il 96% ha considerato i loro malati sensibili e il 94% talentuosi. Gli aspetti positivi del carico familiare erano più riconosciuti dai familiari-chiave che erano più convinti che il malato fosse sensibile e che percepivano che ricevevano un livello maggiore di sostegno professionale e supporto psicologico e sociale. Questi risultati indicano che la maggior parte dei familiari-chiave considera che la propria esperienza di cura ha avuto un impatto positivo sulla loro vita, nonostante le difficoltà pratiche nella cura dei malati con DM. I professionisti dovrebbero aiutare i parenti ad individuare i benefici del carico familiare senza negare le difficoltà. I medici stessi dovrebbero sviluppare un atteggiamento positivo verso il coinvolgimento familiare nella cura di pazienti con malattie a lungo termine.

## INTRODUZIONE

Le ricerche e la pratica clinica evidenziano che le famiglie coinvolte nella cura di pazienti con malattie croniche di lunga durata facilitano l'accettazione della malattia nel paziente, migliorano la collaborazione al programma terapeutico e influenzano positivamente la risposta clinica del paziente al trattamento. Per i familiari l'assistenza di malati con malattie di lunga durata, può essere un'esperienza sia impegnativa che gratificante. Anche se le difficoltà incontrate dai caregivers sono state ampiamente indagate, gli aspetti positivi sono stati poco esplorati. I pochi dati sui benefici dei caregivers sono ricavati principalmente dagli studi sui familiari di pazienti affetti da demenza e cancro. Questi dati rivelano che un senso di crescita personale, l'apprezzamento di chi riceve le cure, la vicinanza della famiglia, la forza per affrontare nuove sfide, un approccio alla vita giorno per giorno, la spiritualità e la rivalutazione dei valori sono conseguenze psicologiche frequentemente sperimentate dai caregivers.

Gli studi su questo argomento hanno anche dimostrato che i familiari dei pazienti con un elevato livello di dipendenza familiare più frequentemente riconoscono gli aspetti positivi. Lo stesso è anche stato dimostrato nei familiari che avvertono un adeguato sostegno dalla rete sociale e dai professionisti.

Sebbene ci sono aspetti comuni in tutta la gamma delle malattie di lunga durata che possono contribuire alla percezione di un'esperienza gratificante nel caregiving, esistono differenze nella percezione tra le malattie. Queste differenze derivano principalmente dalle caratteristiche cliniche e dal grado di accettazione sociale di ogni malattia.

Nel caso della distrofia muscolare (DM), un gruppo di malattie rare caratterizzato da progressiva debolezza, nonostante l'alto livello di dipendenza fisica, molti pazienti vivono a casa, dove per diversi anni ricevono quotidianamente assistenza dai loro familiari. I dati di uno studio (Pangalila et al.) su 80 familiari di 57 pazienti adulti con Distrofia Muscolare di Duchenne (DMD), ha mostrato che il 97% dei familiari sentivano che le cure per i loro familiari erano importanti per loro, mentre il 90% affermava che le cure erano apprezzate da chi le riceveva. Uno studio (Kenneson and Bobo) di 1,238 donne che si sono prese cura di uno o più familiari con DMD o con Distrofia Muscolare di Becker (BMD) ha rilevato che il 68% degli intervistati si sentiva principalmente o totalmente soddisfatto della vita. Questo studio ha inoltre rilevato che gli intervistati hanno fortemente associato il supporto sociale con la propria soddisfazione per la vita. Ancora di più interessante, è emerso che le caregiver donne avevano più spesso un coniuge o un convivente rispetto le donne della popolazione generale, ciò suggerisce che crescere un figlio con una disabilità rinforza il legame tra i partners. Le scoperte di uno studio qualitativo su 12 familiari di bambini con DMD ha fatto emergere che i parenti percepivano la malattia in diversi modi, come una grave perdita, per esempio, o come un richiamo ad adattarsi o come un modo per riscoprire il figlio, e che le loro valutazioni portavano a strategie diverse per far fronte alla malattia.

In Italia nel 2012, abbiamo effettuato un sondaggio nazionale riguardo a 502 famiglie di pazienti di età compresa tra i 4 e i 25 anni che avevano una forma severa di distrofia muscolare (DMD, BMD, LGMD).

Lo studio mirava a descrivere i vantaggi e le difficoltà dell'esperienza di cura del familiare chiave, così come il supporto professionale e sociale su cui potevano contare. Il prendersi cura della persona malata, è un peso psicologico significativamente maggiore, considerato come un indice indiretto di stress, tra i parenti cui malati avevano un maggiore grado di disabilità e tra i parenti che spendevano più ore al giorno nella cura del malato e tra i parenti che avevano poco supporto sociale.

Questo articolo si focalizza sugli aspetti positivi del prendersi cura riportati dai menzionanti 502 familiari chiave di pazienti con DM. Descriviamo se i familiari percepivano il prendersi cura come un'esperienza positiva e valutiamo se le percezioni dei familiari variano in relazione a: la loro opinione del malato come persona stimata, il grado di coinvolgimento nella cura e il livello di supporto fornito dalla rete sociale e dai professionisti.

## METODI

Lo studio è stato effettuato in Italia dal Gennaio al Dicembre del 2012 e ha coinvolto 8 centri specializzati per la cura di DM. In ogni centro veniva contattato il familiare chiave (la persona che si occupa principalmente della cura del paziente) del paziente di età compresa tra i 4 e i 25 anni che aveva una diagnosi di DMD, BMD o LGMD e che era in trattamento da almeno sei mesi .

Il protocollo di studio era stato approvato dal Comitato Etico dell'Università di Napoli e successivamente dai Comitati Etici dei centri partecipanti. Lo studio veniva effettuato in accordo alle Direttive Etiche internazionali definite nella Dichiarazione di Helsinki.

A ciascun familiare chiave, di età compresa tra i 18 e gli 80 anni, veniva sottoposto ad intervista che mirava a classificare il paziente sulla base del Barthel Index (BI) (valutazione del livello di autonomia nella vita quotidiana del paziente) ,e gli venivano somministrati il Questionario sui problemi familiari (FPD) e il Questionario sulla rete sociale (SNQ).

Il Questionario sui problemi familiari (FPD) indaga il carico degli intervistati, il supporto dai professionisti e dalla rete sociale, nelle situazioni di emergenza riguardanti la condizione del paziente. Contiene inoltre quattro items valutati su una scala di 4 livelli (da "moltissimo" a "per niente"), che si focalizzano sulle percezioni dei familiari chiave nella cura del malato come un'esperienza positiva e sul paziente come una persona sensibile e talentuosa. Due domande aperte inoltre chiedevano ai familiari chiave di specificare i talenti e le abilità del malato, le risposte venivano poi raggruppate. In particolare le risposte agli aspetti positivi della cura venivano raggruppate in cinque categorie: crescita personale, altruismo, flessibilità, condivisione di esperienze e altro. Ogni talento o abilità del paziente veniva raggruppato in otto categorie: tecnologiche, artistiche, sportive, cognitive, manuali, psicologiche, culturali e altro.

Il Questionario sulla rete sociale (SNQ) indaga i contatti sociali degli intervistati, il livello di supporto sociale psicologico e pratico e la qualità di un'intima relazione con il partner.

## ANALISI STATISTICA

Le relazioni tra gli aspetti positivi dell'esperienza di cura dei familiari chiave, le caratteristiche sociodemografiche e le variabili cliniche, erano analizzate attraverso l'analisi della varianza (ANOVA) o con il coefficiente di Spearman's.

Le correlazioni tra gli aspetti positivi dell'esperienza di cura dei familiari, le risposte riguardo la percezione dei familiari sul malato come una persona sensibile e con abilità, il carico familiare, e il livello di supporto sociale e professionale erano analizzate con il coefficiente di Spearman's.

La regressione multipla era utilizzata per analizzare simultaneamente gli effetti degli items sopra menzionati con il riconoscimento degli aspetti positivi della cura da parte dei familiari.

## RISULTATI

Come indicato nella tabella 1, la maggior parte dei 502 pazienti erano maschi, giovani e che frequentavano la scuola. Il 66% (333) dei pazienti erano DMD, il 26% (129) BMD e l'8% (40) LGMD. Il livello medio di autonomia nella vita quotidiana del paziente, misurato attraverso il BI, era 68,3% (deviazione standard 31,3). Il 39% (194) dei pazienti era in carrozzina. La maggior parte dei pazienti erano in trattamento farmacologico (73%) e il 67% era in trattamento riabilitativo.

**Table 1** Characteristics of the 502 patients and their key relatives

	Patients (N = 502)	Key relatives (N = 502)	
<b>Sex, N (%)</b>			
Male	484 (96)	74 (15)	
Female	18 (4)	428 (85)	
Age, mean (SD) years	12.8 (5.6)	43.4 (7.4)	
<b>Marital status, N (%)</b>			
Single	502 (100)	61 (12)	
Cohabitant/spouse	0	441 (88)	
		Attendance	Degree
<b>Education, N (%) yes</b>			
Pre-school		430 (86)	502 (100)
Primary school		50 (12)	–
Secondary school		148 (34)	35 (7)
High school		90 (21)	184 (37)
University		127 (29)	219 (44)
University		17 (4)	64 (12)
Currently employed, N (%) yes		7 (1)	264 (53)
<b>Relationship with the patient, %</b>			
Mother		–	424 (84)
Father		–	70 (14)
Other		–	8 (2)
Duration of symptoms, mean (SD) years		8.9 (5.5)	–

La maggior parte dei familiari chiave erano madri e vivevano con un compagno o sposo. Almeno la metà dei familiari chiave aveva ricevuto un'educazione di scuola superiore e avevano un impiego. Il 22% ricevevano sostegno dai professionisti mentre il 10% erano in contatto con associazioni. L' 88% (434) dei familiari chiave affermava che aveva ottenuto un qualcosa di positivo da questa situazione mentre il 5% (26) affermava che avevano considerato di allontanarsi dal paziente negli ultimi due mesi.

**Table 2** Relatives' acknowledgment of positive aspects of caregiving and of patient's abilities

	Very much/a lot, <i>N (%)</i>	A little, <i>N (%)</i>	Not at all, <i>N (%)</i>
All things considered, I have got something positive out of this situation	326 (66)	108 (22)	58 (12)
P is sensitive and concerned about other people's problems	275 (63)	142 (32)	22 (5)
I think that P has some special abilities or talents	339 (68)	141 (28)	20 (4)
In the past 2 months, the thought of parting from S crossed my mind	3 (1)	23 (4)	476 (95)

Tra i 434 familiari chiave che riportavano che avevano ottenuto qualcosa di positivo da questa situazione, l'86% (374) indicavano almeno un aspetto positivo specifico dell'esperienza di cura. Che erano raggruppati come segue:

- . Crescita personale (72%)
- . Flessibilità (15%)
- . Condivisione dell'esperienza ( 3%)
- . Altro (3%)

Il 94% (417) dei familiari chiave consideravano i loro pazienti come sensibili, mentre il 96% (480) li considerava talentuosi. Tra i 480 il 90% (430) ha specificato i talenti e le abilità come segue:

- . abilità psicologiche (58%)
- . abilità cognitive( 48%)
- . abilità artistiche (23%)

- . abilità tecnologiche (11,2%)
- . abilità culturali (7%)
- . abilità sportive (4%)
- . abilità manuali (3%)
- . altro (5%)

#### ANALISI MULTIVARIATA ED UNIVARIATA

Gli aspetti positivi dell'esperienza di cura erano rilevati con maggior convinzione dai familiari chiave che segnalavano più difficoltà pratiche ( $r=0.14$ ,  $p/0.001$ ) e dai familiari chiave che avevano malati con un maggior livello di dipendenza ( $r=-0.16$ ,  $p/0.001$ ) e con una maggior durata della malattia ( $r=0.14$ ,  $p/0.003$ ).

Il percepire tale situazione come un'esperienza positiva era maggiore tra i familiari convinti che il loro paziente fosse una persona sensibile ( $r=0.20$ ,  $p/0.0001$ ) e avesse talenti e abilità ( $r=0.20$ ,  $p/0.01$ ). Inoltre, gli aspetti positivi erano riportati più spesso dai familiari chiave che avevano più contatti sociali ( $r=0.11$ ,  $p/0.01$ ), che ricevevano sostegno dai loro amici ( $r=0.22$ ,  $p/0.0001$ ) e/o dai loro partners ( $r=0.14$ ,  $p/0.003$ ), e che avevano migliorato i contatti sociali nell'anno precedente ( $r=0.17$ ,  $p/0.0001$ ). Infine, la conoscenza degli aspetti positivi dei familiari chiave correla con il livello di sostegno dai professionisti ( $r=0.24$ ,  $p/0.0001$ ).

L'analisi di regressione multivariata rappresentava il 18% della varianza nel riconoscimento dei familiari di aspetti positivi del prendersi cura del malato (table3), confermando che questi aspetti sono più riconosciuti dai familiari chiave che erano più convinti che il paziente era sensibile e che percepivano che c'era un livello superiore di aiuto professionale e di sostegno sociale psicologico.

**Table 3** Regression analysis: effects of patients' clinical variables and relatives' attitudes towards the patients, and social and professional support on acknowledgment of positive aspects of caregiving

	Block 1	Block 2	Block 3	Block 4
Independent variables	Standardized beta value			
BI global score	- 0.10	- 0.10	- 0.10	- 0.08
Objective burden	0.03	0.01	0.05	0.10
Duration of illness	0.07	0.04	0.04	0.06
Patient as sensitive person		0.17 <sup>c</sup>	0.17 <sup>c</sup>	0.16 <sup>c</sup>
Patient abilities and talents		0.15 <sup>a</sup>	0.13 <sup>a</sup>	0.08
Professional help			0.21 <sup>d</sup>	0.18 <sup>d</sup>
Social contacts				- 0.04
Support by the partner				0.02
Psychological support by the social network				0.20 <sup>c</sup>
Improvement of social contacts in the last year				0.09
Model's <i>F</i> , <i>df</i> , <i>p</i> <	8.5, 10, 394, 0.0001			
<i>R</i> <sup>2</sup>	0.03	0.09	0.13	0.18

<sup>a</sup> *p* < 0.01

<sup>b</sup> *p* < 0.005

<sup>c</sup> *p* < 0.001

<sup>d</sup> *p* < 0.0001

## DISCUSSIONE

Aspetti positivi del caregiving e variabili influenti

Questo studio mostra che l'84% del campione (familiari chiave) era rappresentato dalle madri e che poche madri riconoscevano sentimenti negativi nell'assistenza dei loro figli, come previsto tenendo conto delle abitudini sociali italiane.

I risultati di questo studio indicano che la maggior parte dei familiari chiave considerano che la loro esperienza di caregiving ha avuto un impatto positivo sulla loro vita, nonostante le difficoltà pratiche nel prendersi cura dei pazienti con DM.

In linea con i risultati di altri studi (14,16,20,23), l'88% dei familiari chiave ha riportato che aveva ottenuto qualcosa di positivo dalla situazione. In particolare il 72% ha riferito che ha cambiato la percezione del

senso del valore della vita, mentre il 18% ha citato un maggiore senso di forza e coraggio contro le avversità.

Queste scoperte possono essere interpretate all'interno del modello transazionale di Lazarus e Folkman', che sostengono che l'adattamento dell'individuo a un evento è un processo basato sulla valutazione cognitiva primaria e secondaria. Per quanto riguarda la DM, una valutazione primaria si riferisce alla realizzazione di ciò che è la malattia, mentre la valutazione secondaria implica lo sviluppo di strategie emotive e orientate al problema, al fine di affrontare le difficoltà conseguenti la cura di pazienti con DM. All'interno di questo modello l'adattamento è significativamente influenzato da fattori interni, come l'atteggiamento dei familiari chiave verso il paziente, le risorse esterne e la disponibilità del sostegno sociale e professionale.

Le intenzioni dei familiari chiave ad impegnarsi nella cura può essere dovuta a diversi fattori, come: (a) l'alto grado di accettazione sociale della DM, conseguente la valorizzazione del ruolo del caregiver; (b) la consapevolezza delle scarse alternative alla cura della famiglia (c) la disponibilità di prestazioni sociali dovute all'assistenza familiare (d) l'amore innato e il senso di responsabilità nei confronti di un bambino affetto da una malattia invalidante con un esito negativo (e) il processo di adattamento di malattia in una persona cara, che comporta l'uso scontato di strategie di coping focalizzate sulle emozioni, come l'evasione, che è inefficace per la gestione dello stress a lungo termine (32,42,43).

Tra i 26 familiari chiave (5%) che avevano affermato che si sarebbero allontanati dai loro malati, 23(92%) avevano un impiego, e avevano malati con una durata media della malattia di 10.1(6,9 DS) anni. Inoltre, confrontando con i familiari che non avevano espresso questi sentimenti, essi erano familiari di pazienti con un livello superiore di dipendenza e che ricevevano minore sostegno psicologico dai loro amici e/o dai loro partners .

I familiari che segnalavano un maggiore carico oggettivo, erano più convinti che la situazione aveva conseguenze positive per la loro vita. Questa scoperta mostra che, quando i familiari possono gestire le difficoltà pratiche nella cura con malati con DM, la loro soglia di tolleranza allo stress non eccede, quindi sono in grado di considerare gli aspetti positivi piuttosto che il carico.

L'adattamento a lungo termine dei familiari chiave per la cura dei con pazienti con DM, è stato confermato anche dalle analisi statistiche che mostrano che, i familiari chiave che sono stati coinvolti nella cura più a lungo, danno una maggiore valutazione positiva di questa esperienza.

Sebbene questo studio non esamina il prendersi cura dei malati nello stadio più grave della DM, è probabile che in tali casi, quando i compiti diventano troppo esigenti per i familiari chiave, le loro percezioni sugli aspetti positivi possano diminuire, mentre le conseguenze psicologiche possano aumentare.

Il nostro studio inoltre riscontra che i familiari chiave che avevano un atteggiamento positivo verso i loro malati, riuscivano maggiormente ad identificarsi con gli aspetti positivi della situazione. Questa scoperta indica l'importanza di aiutare i familiari chiave a identificare " la persona al di là della malattia" come strategia per valorizzare la loro esperienza vissuta e supportare i loro malati nell'adattarsi alla malattia.

In questo studio, i fattori intrafamiliari sono emersi molto significativi e correlati agli aspetti positivi della cura dei familiari chiave. In particolare coloro che si sentivano supportati dai loro coniugi o compagni, erano più facilitati ad identificarsi con gli aspetti positivi del caregiving. Questa scoperta è in linea con i dati di precedenti studi (7,26,41), nei quali è stato trovato che l'evento di una grave malattia, rafforza il legame tra

i familiari del bambino malato. Generalmente nel nostro studio emergono legami parentali rafforzati, in cui più del 70% dei familiari chiave si considera completamente compreso e aiutato dai loro partner.

Il sostegno psicologico dalla rete sociale e dalle figure professionali erano entrambi correlati alla percezione, da parte dei familiari chiave, di un'esperienza positiva. Questi risultati supportano le ricerche che suggeriscono che la rete sociale è un fattore critico nel ridurre gli effetti dannosi dello stress e funge da cuscinetto tra l'affrontare un evento e lo stress (26,34,44). Queste scoperte erano anche correlate dalla correlazione inversa tra il senso di carico familiare dei familiari chiave e il senso di supporto dalla rete sociale. Inoltre, sebbene l'indagine dell'impatto delle risorse sociali sui sentimenti negativi del familiare chiave, non era tra gli argomenti di questo studio, è probabile che i familiari con un basso sostegno sociale e che erano disoccupati sono potenzialmente a rischio a percepire rabbia e ingiustizia.

## CONSIDERAZIONI METODOLOGICHE

A nostra conoscenza, questo è il primo studio sulle condizioni dei familiari di giovani pazienti con DM, (1) condotto su un vasto campione nazionale di familiari chiave di malati con differenti DM; (2) che ha utilizzato strumenti di valutazione validati già disponibili in diverse lingue; (3) che ha esaminato gli aspetti positivi del prendersi cura della persona malata in relazione al carico della cura, ai fattori personali del familiare chiave o l'atteggiamento verso il malato, e le risorse professionali e sociali; e (4) che ha esaminato l'esperienza positiva del prendersi cura del malato mediante misure quantitative e mediante descrizioni soggettive dei familiari.

Grazie al disegno trasversale, questo studio non permette inferenze per quanto riguarda l'evoluzione degli aspetti positivi nel tempo o se le risorse esterne e l'atteggiamento verso il malato influenzano la percezione dei familiari chiave sugli aspetti positivi e viceversa. L'indagine si è focalizzata sull'esperienza vissuta dai familiari di pazienti con DMD, BMD, e LGMD di età compresa tra i 4 e i 25 anni. Pertanto questi risultati non possono essere generalizzati ai familiari di pazienti più grandi e che sono affetti da altre forme di DM. Questi aspetti saranno l'oggetto specifico in ulteriori studi che sono ora nella fase di progettazione.

## IMPLICAZIONI PRATICHE

I risultati di questo studio possono essere utili per i clinici impegnati con i familiari di pazienti con DM per meglio comprendere la complessità del processo di cura e per capire come supportare le famiglie.

I clinici e gli altri professionisti dovrebbero aiutare i familiari a non sviluppare solo le competenze pratiche ma anche quelle cognitive per affrontare e fornire le cure per i pazienti con DM e saper identificare i benefici di tale situazione senza negare le difficoltà. In particolare i professionisti dovrebbero: (a) fornire informazioni sulla malattia del paziente secondo un approccio passo a passo; (b) insegnare ai familiari a rinforzare le loro strategie di coping; e (c) invitare i familiari a condividere le loro esperienze con altre famiglie attraverso il coinvolgimento di associazioni di familiari e gruppi di auto-aiuto (45).

Inoltre gli stessi clinici dovrebbero sviluppare atteggiamenti positivi verso i familiari. Questo non sempre avviene, come ha riportato Green (16), una madre di un paziente con paralisi cerebrale e un ricercatore, che ha affermato che "i familiari che hanno un atteggiamento positivo per un figlio disabile sono spesso patologici, irrealistici, non accettano la "tragica circostanza...".

## STUDI FUTURI

Gli studi sul processo di cura dei pazienti con DM, dovranno nello specifico indagare i seguenti aspetti : (a) l'adattamento dei familiari chiave nelle differenti fasi della malattia, (b) l'esperienza del processo di cura in altri familiari della stessa famiglia, (c) gli effetti dell'atteggiamento dei familiari sulle percezioni del paziente della loro personale esperienza con la malattia, (d) gli effetti degli interventi di sostegno al fine di migliorare le strategie di coping nei familiari, e (e) l'influenza dell'accettazione della consapevolezza della malattia sul benessere dei familiari e del paziente.

I futuri studi del nostro gruppo di ricerca su un ampio campione di pazienti con DM di età maggiore, fornirà un modello per i sentimenti negativi/positivi in relazione alla progressione della malattia, e un profilo della percezione psicologica della malattia con il passare del tempo.