UNIVERSIDAD REY JUAN CARLOS

Facultad de Ciencias de la Salud

Departamento de Medicina y Cirugía, Psicología, Medicina Preventiva y Salud Pública e Inmunología y Microbiología Médicas

EVALUACIÓN DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECÍFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS.

TESIS DOCTORAL

Josefa Barrio Torres

Madrid, 2015.

Facultad de Ciencias de la Salud
Departamento de Medicina y Cirugía, Psicología,
Medicina Preventiva y Salud Pública
e Inmunología y Microbiología Medicas.

Universidad
Rey Juan Carlos

TESIS DOCTORAL

TITULO: EVALUACIÓN DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECÍFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS.

AUTORA: JOSEFA BARRIO TORRES

DIRECTORES:

DR ANGEL GIL MIGUEL

DRA ENRIQUETA ROMAN RIECHMANN

DRA Mª LUZ CILLERUELO

Facultad de Ciencias de la Salud
Departamento de Medicina y Cirugía, Psicología,
Medicina Preventiva y Salud Pública
e Inmunología y Microbiología Medicas

Universidad
Rey Juan Carlos

D. ANGEL GIL DE MIGUEL,

CATEDRÁTICO DE MEDICINA PREVENTIVA Y SALUD PUBLICA DEL DEPARTAMENTO DE MEDICINA Y CIRUGIA, PSICOLOGIA, MEDICINA PREVENTIVA Y SALUD PÚBLICA, E INMUNOLOGIA Y MICROBIOLOGIA MEDICAS DE LA UNIVERSIDAD REY JUAN CARLOS

CERTIFICA:

Que el proyecto tesis doctoral titulado: "EVALUACIÓN DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECÍFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS" ha sido realizada bajo mi dirección, por Dª Josefa Barrio Torres, y reúne todos los requisitos científicos y formales para ser presentado y defendido ante el tribunal correspondiente.

Y para que así conste a todos los efectos, firmo el presente certificado en Madrid, a 24 de Junio del 2015.

Departamento de Pediatría
Hospital Universitario Puerta Hierro
Facultad Autónoma de Madrid

Dra. ENRIQUETA ROMAN RIECHMANN

JEFE DE SERVICIO DE PEDIATRIA. HOSPITAL UNIVERSITARIO PUERTA HIERRO. MAJADAHONDA. DOCTORA EN MEDICINA. PROFESORA ASOCIADA DEL DEPARTAMENTO DE PEDIATRIA DE LA FACULTAD DE MEDICINA DE LA UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE MADRID.

CERTIFICA:

Que el proyecto de tesis Doctoral titulado "EVALUACIÓN DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECÍFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS" ha sido realizada bajo mi dirección, por Dª JOSEFA BARRIO TORRES, y reúne todos los requisitos científicos y formales para ser presentado y defendido ante el tribunal correspondiente.

Y para que así conste a todos los efectos, firmo el presente certificado en Madrid, a 24 de Junio del 2015.

Departamento de Pediatría
Hospital Universitario Puerta Hierro
Facultad Autónoma de Madrid

Dra. Mª LUZ CILLERUELO PASCUAL

FACULTATIVO ESPECIALISTA DEL SERVICIO DE PEDIATRIA HOSPITAL UNIVERSITARIO PUERTA DE HIERRO. MAJADAHONDA. DOCTORA EN MEDICINA. PROFESORA COLABORADORA DOCENTE DEL DEPARTAMENTO DE PEDIATRIA DE LA FACULTAD DE MEDICINA DE LA UNIVERSIDAD AUTÓNOMA DE MADRID.

CERTIFICA:

Que el proyecto de tesis Doctoral titulado: "EVALUACIÓN DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECÍFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS" ha sido realizada bajo mi dirección por Dª JOSEFA BARRIO TORRES, y reúne todos los requesitos científicos y formales para ser presentado y defendido ante el tribunal correspondiente.

Y para que así conste a todos los efectos, firmo el presente certificado en Madrid, a 24 de Junio del 2015.

A mis padres que son el pilar de mi vida.

A mi amado, que me ayuda a sonreir cada día.

AGRADECIMIENTOS

A mis padres, a los que debo todo y cuyo sacrificio me ha permitido ser lo que soy.

Siempre agradeceré a mi madre su compañía en mis noches de vela cuando estudiaba medicina, su apoyo constante, especialmente en mis momentos de desánimo, sus enseñanzas sobre la vida. Gracias por enseñarme que con tesón y esfuerzo se pueden lograr nuestras metas.

A José, mi compañero, por su apoyo incondicional.

A Eni y Mª Luz que me inculcaron su pasión por la Gastroenterología Infantil, que siempre han sido mi referente a nivel profesional y a las que quiero y admiro profundamente por su gran profesionalidad. Su ayuda como directoras de tesis ha sido inestimable.

A mis adjuntos del Hospital Severo Ochoa, especialmente a Isabel, Nieves y Verónica, que me ayudaron a formarme como la pediatra que soy y a cuyo lado fui tan feliz durante mi periodo de formación MIR.

A Cristina Pérez, con quien inicié mis primeros pasos en el campo de la investigación y cuya ayuda personal y profesional ha sido fundamental para llevar a cabo este proyecto. Gracias por tu ayuda y por animarme siempre a continuar hacia delante.

A Beatriz, la mejor compañera de trabajo que se puede tener.

A mis amigos, en especial a Carmen, Gonzalo, Silvia, Juan, Marga, Gloria, Enrique, César, Sonia por compartir conmigo tantos buenos momentos y por apoyarme y animarme en los momentos de desánimo durante la realización de este trabajo.

A la Asociación de Celíacos de Madrid y Sensibles al Gluten y muy especialmente a Manuela Márquez, sin cuya colaboración este trabajo no habría sido posible.

A Mª Luisa Mearín, autora del CDDUX, por su amabilidad al facilitarnos el cuestionario original, y por su ayuda en la publicación de este trabajo.

A Juan Medino, de la biblioteca del Hospital de Fuenlabrada por su ayuda constante en la búsqueda de las fuentes científicas.

Al Hospital de Fuenlabrada, que me ha permitido llevar a cabo mi labor como Gastroenterólogo Pediátrico y madurar profesionalmente.

A los niños celíacos, con la esperanza de que este estudio sea útil para comprender mejor los problemas que afectan su calidad de vida y nos permita ayudarles a resolverlos y vivir mejor con la enfermedad.

"Nuestra recompensa se encuentra en el esfuerzo y no en el resultado. Un esfuerzo total es una victoria completa."

Mahatma Gandhi

A veces sentimos que lo que hacemos es tan solo una gota en el mar, pero el mar sería menos si le faltara una gota.

Teresa de Calculta

INDICE

I. INTRODUCCIÓN ……. 1

1. ENFERMEDAD CELÍACA …… 3

1.1. DEFINICIÓN …… 3

1.2. EPIDEMIOLOGÍA…… 3

1.3. PATOGENIA……. 4

1.4. FORMAS CLÍNICAS Y ENFERMEDADES ASOCIADAS …… 6

1.5. DIAGNÓSTICO …… 10

1.5.1. Tests serológicos ……. 10

1.5.2. Diagnóstico histopatológico …… 13

1.5.3. Nuevos criterios diagnósticos de la EC. ESPGHAN 2012[1] …….. 14

1.6. TRATAMIENTO …… 16

1.6.1. Dieta sin gluten …… 16

1.6.2. Adherencia a la dieta sin gluten …… 17

1.7. SEGUIMIENTO …… 26

2. IMPACTO DE LA EC EN LA CALIDAD DE VIDA DEL PACIENTE CELÍACO . 27

3. CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD ……. 30

3.1. CONCEPTO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD (CVRS) …….. 30

3.2. CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN LA INFANCIA Y ADOLESCENCIA ……. 31

3.3. INSTRUMENTOS DE MEDIDA DE LA CVRS …… 32

3.3.1. Cuestionarios de CVRS ……. 32

3.3.1.1. Tipos de cuestionarios de CVRS …… 33

3.3.1.2. Criterios para seleccionar un cuestionario de CVRS …….. 36

3.3.1.3. Características psicométricas. Validación de un cuestionario ……... 37

3.3.1.4. Adaptación transcultural de un cuestionario ……. 38

3.3.2. CUESTIONARIOS DE CVRS EN LA INFANCIA Y ADOLESCENCIA …… 39

4. CUESTIONARIOS DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN EL PACIENTE CELÍACO …….. 47

4.1. ESTUDIOS QUE EVALUAN LA CVRS EN ADULTOS CON EC …… 47

4.1.1. Estudios de CV en celíacos adultos utilizando cuestionarios genéricos …… 47

4.1.1.1. Estudios realizados con el cuestionario SF 36 …… 47

4.1.1.2. Estudio realizado utilizando la versión corta del cuestionario SF (SF 12) 49

4.1.1.3. Estudios realizados en España con celíacos adultos utilizando cuestionarios genéricos …….. 50

4.1.2. Estudios de CV en celíacos adultos utilizando cuestionarios específicos ….. 51

4.1.2.1. The Celiac Disease Questionnaire (CDQ) …… 53

4.1.2.2. The coeliac disease quality of life Survey (CD-QOL) …….. 54

4.2. ESTUDIOS QUE EVALÚAN LA CV EN NIÑOS CON EC …… 58

4.2.1. Estudios de CV en niños celíacos utilizando cuestionarios genéricos …… 58

4.2.2. Estudios de CV en niños celíacos utilizando cuestionarios específicos ……. 61

4.2.2.1. Cuestionario CDDUX. Holanda.2008 …… 62

4.2.2.2. Celiac Disease Quality of Life Instrument for North American Children. 2013 …… 62

4.2.3. Estudios de CV en niños celíacos utilizando métodos cualitativos ……. 68

II. JUSTIFICACIÓN Y OBJETIVOS …….. 71

1. HIPÓTESIS Y JUSTIFICACIÓN DEL ESTUDIO ……. 73

III. MATERIAL Y MÉTODOS ……. 71

1. ÁMBITO DE APLICACIÓN ……... 75

2. DISEÑO DEL ESTUDIO …… 77

3. SUJETOS DE ESTUDIO …… 78

4. TAMAÑO MUESTRAL …… 78

5. VARIABLES DEL ESTUDIO …… 79

6. DESCRIPCIÓN DE LOS CUESTIONARIOS …… 80

6.1. CUESTIONARIO KIDSCREEN ……. 80

6.2. CUESTIONARIO CDDUX …….. 81

7. ADAPTACIÓN TRANSCULTURAL DEL CUESTIONARIO CDDUX AL ESPAÑOL …….. 83

8. EVALUACIÓN DE LA FIABILIDAD Y VALIDEZ DE LA VERSIÓN ESPAÑOLA DEL CUESTIONARIO CDDUX …… 83

9. ANÁLISIS ESTADISTICO ..…… 86

10. CONSIDERACIONES ÉTICAS …… 88

IV. RESULTADOS …… 89

1. POBLACIÓN DE ESTUDIO …….. 91

1.1. DATOS DEMOGRÁFICOS EN EL MOMENTO DE CUMPLIMENTAR LA ENCUESTA ……. 93

1.2. DATOS CLÍNICOS ……. 96

1.3. REPRESENTATIVIDAD DE LA MUESTRA …… 100

2.1. VALIDACIÓN DEL CUESTIONARIO CDDUX …… 101

2.2. EVALUACIÓN DE LA CVRS UTILIZANDO EL CUESTIONARIO CDDUX 102

2.2.2. Estudio de las variables relacionadas con la CVRS ……... 107

2.2.2.1. Análisis univariable ……. 107

2.2.2.2. Modelo de regresión lineal múltiple con el cuestionario CDDUX …….. 116

3. CUESTIONARIO KIDSCREEN …… 117

3.1. EVALUACION DE LA CVRS UTILIZANDO EL CUESTIONARIO KIDSCREEN 117

3.1.1. Respuesta a la primera pregunta del cuestionario: ¿En general cómo diría que es su salud? ……... 118

3.1.2. Respuesta a las dimensiones del cuestionario …… 119

3.1.3. Estudio de las variables relacionadas con la CVRS al utilizar el cuestionario Kidscreen …….. 124

3.1.3.1. Análisis univariable …… 124

3.1.3.2. Modelos de regresión lineal múltiple ……. 152

4. COMPARACIÓN ENTRE EL CUESTIONARIO GENÉRICO KIDSCREEN Y EL CUESTIONARIO ESPECÍFICO CDDUX ……. 155

4.1. VARIABLES RELACIONADAS CON LA CVRS AL UTILIZAR AMBOS CUESTIONARIOS …… 155

4.2. COMPARACIÓN DE LAS PUNTUACIONES DEL CUESTIONARIO CDDUX CON LAS REPUESTAS A LA PREGUNTA SOBRE COMO DIRÍAN QUE ES SU SALUD (KIDSCREEN) …… 157

4.3. CORRELACIÓN ENTRE LAS DIMENSIONES DEL CUESTIONARIO ESPECÍFICO CDDUX Y DEL GENÉRICO KIDSCREEN …… 159

5. COMPARACIÓN DE LAS PUNTUACIONES MEDIAS DE CVRS DE NIÑOS CELÍACOS ESPAÑOLES Y SUS PADRES, CON LAS OBTENIDAS POR LOS OTROS AUTORES QUE HAN UTILIZADO EL CUESTIONARIO ESPECÍFICO CDDUX ……. 162

6. COMPARACIÓN DE LAS PUNTUACIONES MEDIAS DE CVRS DE NIÑOS CELÍACOS ESPAÑOLES CON LAS OBTENIDAS POR OTROS AUTORES QUE HAN UTILIZADO EL CUESTIONARIO GENÉRICO KIDSCREEN CON NIÑOS CELÍACOS ……. 163

7. COMPARACIÓN DE PUNTUACIONES MEDIAS DE CVRS DE LOS NIÑOS CELÍACOS ESPAÑOLES CON LAS OBTENIDAS POR OTROS AUTORES QUE HAN UTILIZADO EL CUESTIONARIO GENÉRICO KIDSCREEN DE LA POBLACIÓN GENERAL, NIÑOS SANOS Y NIÑOS CON ENFERMEDADES CRÓNICAS ……. 165

7.1. NIÑOS DE POBLACIÓN GENERAL …… 165

7.2. NIÑOS SANOS Y NIÑOS CON ENFERMEDADES CRÓNICAS ……. 167

V. DISCUSIÓN ……. 169

1. DISCUSIÓN DE LA METODOLOGÍA ……. 171

2. DISCUSIÓN DE LOS RESULTADOS …….. 177

2.1. DATOS DEMOGRÁFICOS …… 177

2.2. DATOS CLÍNICOS ……. 178

2.3. CVRS UTILIZANDO EL CUESTIONARIO CDDUX ……. 181

2.3.1. Validación del cuestionario CDDUX …… 181

2.3.2. CVRS en los niños celíacos españoles y comparación con sus padres …… 182

2.3.3. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros grupos de niños celíacos …….. 184

2.4. CUESTIONARIO KIDSCREEN …… 187

2.4.1. CVRS en los niños celíacos españoles y comparación con sus padres …… 187

2.4.1.1. Respuesta a la pregunta del cuestionario sobre como dirían que es su salud …… 187

2.4.1.2. Respuesta a las dimensiones del cuestionario y comparación de respuestas de niños y padres …… 188

2.4.2. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros grupos de niños celíacos que han utilizado el cuestionario Kidscreen …… 189

2.4.3. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con niños de población general con el cuestionario Kidscreen ……. 190

2.4.4. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros niños con enfermedades crónicas …….. 191

2.5. COMPARACIÓN ENTRE EL CUESTIONARIO GENÉRICO KIDSCREEN Y EL CUESTIONARIO ESPECÍFICO CDDUX …… 192

2.5.1. Comparación de las puntuaciones de ambos cuestionarios …… 192

2.5.2. Comparación de las puntuaciones del cuestionario CDDUX con las repuestas a la pregunta sobre como dirían que es su salud (Kidscreen) ….. 194

2.5.3. Correlación entre ambos cuestionarios …… 194

2.5.4. Variables relacionadas con la CVRS al utilizar ambos cuestionarios ……. 195

2.5.4.1. Análisis univariable …….. 195

2.5.4.2. Modelos de regresión lineal múltiple …… 206

3. FUTURAS LÍNEAS DE INVESTIGACIÓN ……. 207

VI. CONCLUSIONES ……... 209

VII. ANEXOS ……. 213

VIII. BIBLIOGRAFÍA ……. 239

INDICE DE TABLAS

Tabla 1. Ventajas e inconvenientes de los cuestionarios: genéricos y específicos ……. 35

Tabla 2. Cuestionarios de CVRS en niños y adolescentes utilizados en España …… 45

Tabla 3. Cuestionarios específicos de CVRS para pacientes celíacos …….. 52

Tabla 4. Datos de los 480 niños que contestaron el cuestionario CDDUX por género y grupos de edad …….. 93

Tabla 5. Datos demográficos de los 428 padres que contestaron CDDUX …… 95

Tabla 6.- Datos clínicos de los 428 niños cuyos padres contestan la encuesta CDDUX …… 99

Tabla 7. Distribución por edad al rellenar la encuesta y sexo de los 480 niños respecto a la población objetivo de la Asociación de Celíacos de Madrid (ACM) …… 100

Tabla 8. Fiabilidad intracuestionario y entre puntuaciones de niños y padres total y en las 3 dimensiones (n=214) …… 102

Tabla 9. Comparación independiente de las puntuaciones de niños y padres ……. 104

Tabla 10. Comparación emparejada de la media de las diferencias de las puntuaciones de niños y padres …… 106

Tabla 11. Comparación de respuestas de padres según contesten solo ellos o si contestan también sus hijos …….. 107

Tabla 12. Variables relacionadas con la CVRS de los 428 niños cuyos padres contestan …… 111

Tabla 13. Variables no relacionadas con la CVRS de los 428 niños cuyos padres contestan …. 113

Tabla 14. Resumen de variables analizadas y su relación con la CVRS. (análisis univariable) . 115

Tabla 15. Modelo de regresión lineal múltiple. Cuestionario CDDUX ……. 117

Tabla 16. Datos de los 434 niños que contestaron el cuestionario Kidscreen por género y grupos de edad …… 118

Tabla 17. Comparación independiente de las puntuaciones medias de niños y padres ……. 121

Tabla 18. Comparación emparejada de la media de las diferencias de niños y padre (n=208) .. 123

Tabla 19. Comparación de las puntuaciones medias de los padres que contestan junto con sus hijos (n=208) frente a los que contestan los padres solos (n= 179) ……. 124

Tabla 20. Puntuaciones medias de Kidscreen en niños según el género …….. 125

Tabla 21. Puntuaciones medias de Kidscreen en niños según edad al contestar la encuesta ….. 126

Tabla 22. Puntuaciones medias de CVRS en niños que contestan Kidscreen según la edad al diagnóstico …….. 128

Tabla 23. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según el tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico …… 130

Tabla 24. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la forma clínica de presentación ……. 132

Tabla 25. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la presencia o no de enfermedades asociadas …… 133

Tabla 26. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según existiesen o no antecedentes familiares de EC ……. 134

Tabla 27. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la adherencia a la dieta …… 136

Tabla 28. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen dificultades con la dieta …… 138

Tabla 29. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según síntomas con las transgresiones …… 139

Tabla 30. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la frecuencia de seguimiento …….. 140

Tabla 31. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de si contesta madre o padre ……. 143

Tabla 32. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de con quien convivían …… 144

Tabla 33. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función del nivel de estudios del padre …….. 145

Tabla 34. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función del nivel de estudios de la madre …….. 146

Tabla 35. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de la profesión del padre …….. 147

Tabla 36. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de la profesión de la madre …… 149

Tabla 37. Variables relacionadas con la CVRS, según las distintas dimensiones del cuestionario Kidscreen …… 151

Tabla 38. Modelo de regresión lineal múltiple para evaluación de variables relacionadas con CVRS utilizando el cuestionario Kidscreen …… 154

Tabla 39. variables relacionadas con la CVRS tras estudio de regresión lineal al utilizar ambos cuestionarios ……. 156

Tabla 40. Comparación en niños entre la respuesta a la pregunta sobre como dirían que es su salud y las puntuaciones del CDDUX …….. 158

Tabla 41. Comparación en los padres entre la respuesta a la pregunta sobre como dirían que es su salud y las puntuaciones del CDDUX ……. 159

Tabla 42. Correlación entre las puntuaciones de los cuestionarios CDDUX y Kidscreen en los niños …… 160

Tabla 43. Correlación entre las puntuaciones de los cuestionarios CDDUX y Kidscreen en los padres …… 161

Tabla 44. Comparación de puntuaciones en los 3 grupos de celíacos que utilizaron CDDUX y sus padres ……. 163

Tabla 45. Comparación de puntuaciones medias de CVRS de los grupos de niños celíacos que han utilizado kidscreen. …… 164

Tabla 46. Comparación de las puntuaciones de CVRS de niños celíacos españoles con 4 grupos de niños de población general utilizando el Kidscreen …….. 166

Tabla 47. Comparación de resultados de Kidscreen en niños celíacos españoles y otros grupos de niños con enfermedades crónicas …….. 168

INDICE DE FIGURAS

Figura 1. Diagrama de flujo de la selección de la población incluida en el estudio ……. 92

Figura 2. Niños que contestaron el cuestionario (n=480): distribución por género y grupos de Edad …… 94

Figura 3. Puntuaciones medias de CVRS en niños y padres que contestaron el cuestionario CDDUX de forma independiente y contestaciones emparejadas …… 105

Figura 4. Puntuaciones medias de CVRS en niños y padres que contestaron el cuestion Kidscreen de forma independiente y contestaciones emparejadas …… 122

ABREVIATURAS

Enfermedad celíaca: EC.

Dieta sin gluten: DSG.

Colaboradores: col.

Antígeno: Ag.

Gastrointestinal: G-I.

Transglutaminasa tisular: TG2.

Células presentadoras de Ag: CPA.

Respuesta inmune celular: Th1.

Interferón γ: IFN γ.

Factor de necrosis tumoral alfa: TNF-α.

Anticuerpos: Acs.

Sociedad Europea de Gastroenterología Hepatología y Nutrición: ESPGHAN.

Anticuerpos antitransglutaminasa: ATG.

Anticuerpos antiendomisio: EMA.

Dermatitis Herpetiforme: DH.

Inmunoglobulinas: Igs.

Inmunoglobulina A: IgA.

Inmunoglobulina G: IgG.

Anticuerpos antigliadina IgA: AGA.

Enzimoinmunoanálisis: ELISA.

Sensibilidad: S.

Especificidad: E.

Inmunofluorescencia indirecta: IFI.

Anticuerpos antipéptido deamidado de la gliadina: Anti-PDG.

Linfocitos intraepiteliales: LIE.

Partes por millón: ppm.

Federación de Asociaciones de Celíacos de España: FACE.

Asociación de Celíacos y sensibles al Gluten de Madrid: ACySGM.

Asociación de Celíacos de Canadá: ACC.

Calidad de vida: CV.

Organización mundial de la salud: OMS.

Calidad de vida relacionada con la salud: CVRS.

BiblioPRO: biblioteca de resultados percibidos por los pacientes.

Cuestionario Short Form (36): SF 36.
Cuestionarios Euro quality of life 5 dimensions: EuroQol-5D (EQ).

The Gastrointestinal Quality of Life Index : GIQLI.

The Celiac Disease Questionnaire : CDQ.

The coeliac disease quality of life Survey:CD-QOL.

Technisch Natuurkundig Children's quality of life questionnaire: TACQOL.

Celiac disease-specific quality of life questionnaire: TACQOL-COE.

Gluten-free diet-specific quality of life questionnaire TACQOL-COE-DIET.

Short version of the Duch TACQOL questionnaire: DUX 25 QoL.
Celiac disease Duch questionnaire: CDDUX.
Celiac Disease Quality of Life Instrument for North American Children: CDPQOL.
Registro Español de EC: (REPAC).

RESUMEN

Antecedentes

La enfermedad celíaca (EC) es una enfermedad sistémica mediada por el sistema inmune y ocasionada por el gluten y las prolaminas relacionadas que se produce en individuos genéticamente predispuestos. Cursa con una atrofia de las vellosidades intestinales de la mucosa del intestino delgado superior y como consecuencia se produce una malabsorción de nutrientes, cuya repercusión clínica y funcional dependerá de la edad y el estado nutricional e inmunitario del paciente.

El tratamiento consiste en la realización de una dieta sin gluten (DSG) durante toda la vida. La retirada del gluten de la dieta conducirá a la desaparición de los síntomas clínicos y a la recuperación de la mucosa intestinal tras un periodo de tiempo variable, entre uno y dos años en la gran mayoría de los pacientes.

El diagnóstico de la EC supone un impacto en la calidad de vida (CV) del paciente. La naturaleza crónica de la enfermedad junto con las limitaciones impuestas por la necesidad de tener que seguir una dieta restrictiva como la dieta sin gluten, las numerosas visitas médicas, el riesgo de tener enfermedades asociadas y las potenciales complicaciones de la enfermedad son un conjunto de factores que van a tener una importante repercusión psicosocial en el paciente y que, en muchas ocasiones, puede tener un impacto negativo en su CV.

La mayoría de los estudios realizados en pacientes pertenecientes a sociedades nacionales de celíacos demuestran que el celíaco experimenta una mejoría de su calidad de vida tras iniciar la dieta exenta de gluten, principalmente los muy sintomáticos al diagnóstico que ven como al realizar la dieta desaparecen sus síntomas. Pero aún así, mantiene puntuaciones de CVRS inferiores a la población general. En otros estudios realizados fuera del ámbito de las asociaciones de pacientes, se confirma efecto negativo que supone sobre el estilo de vida de estos pacientes el tener que realizar una DSG.

Sin embargo, aquellos con escasos síntomas al diagnóstico y los detectados por cribado no perciben una clara mejoría tras el inicio de la dieta, lo que puede generar situaciones de rebeldía y negación de la enfermedad, produciendo un impacto negativo en su CV. Hay estudios que encuentran una peor CV en estos

pacientes, mientras que otros no encuentran diferencias entre individuos sintomáticos al diagnóstico y los detectados por cribado.

Aunque los síntomas desaparezcan con la dieta, el individuo tiene que cambiar en muchos aspectos su estilo de vida, lo que no siempre resulta fácil, especialmente en los pacientes adultos con hábitos alimentarios más establecidos. Esto genera conflictos principalmente en los estadios iniciales de la enfermedad. Por otra parte, las relaciones sociales de los pacientes con EC, se pueden ver dificultadas por el escaso conocimiento de la enfermedad y la escasa conciencia de enfermedad. Si a esto unimos la necesidad del paciente, especialmente en edad adolescente, de no sentirse diferente a los demás, es frecuente que prefieran no realizar la dieta cuando comen fuera o en las reuniones sociales, a tener que explicar a otros su enfermedad. El difícil acceso a los productos sin gluten cuando comen fuera su domicilio y el coste económico de los mismos, también dificultan el cumplimiento de la dieta. Por todos estos factores destacados es fácil deducir que el cumplimiento no es sencillo, y que puede repercutir de forma negativa en la CV del paciente y su familia.

El concepto de CV cada vez está cobrando más importancia en la sociedad actual.

La Organización mundial de la salud (OMS) define la calidad de vida relacionada con la salud (CVRS), como el efecto funcional que una enfermedad y su tratamiento producen sobre un paciente, y como percibe la enfermedad en los distintos ámbitos de su vida, tanto físico como emocional o social. Permite evaluar desde la propia perspectiva del paciente adulto o del niño y su familia, el impacto de la enfermedad sobre su vida cotidiana, teniendo en cuenta diferentes factores y no sólo los relacionados directamente con el estado o la gravedad de la enfermedad.

La medida de la CVRS se basa en la percepción individual del impacto de los factores médicos y no médicos sobre la función física, mental y social, así como en el concepto de percepción global de bienestar y tiene gran utilidad para evaluar las intervenciones sanitarias. Para medirla de la forma mas objetiva posible han surgido diversos instrumentos construidos en su mayoría siguiendo un *modelo psicométrico* que se basa en la capacidad del individuo para discernir entre estímulos de diferente intensidad. Los más ampliamente utilizados son los *cuestionarios de CVRS.*

Aunque existen diversas clasificaciones de los cuestionarios de CV, la mas ampliamente utilizada es la propuesta por Guyatt, que los divide en *instrumentos genéricos y específicos de enfermedad.*

Los instrumentos genéricos intentan dar una aproximación general del estado de salud e incluyen dimensiones como el funcionamiento físico, social, bienestar emocional, vida familiar, escolar. Son especialmente útiles para comparar pacientes con diferentes enfermedades crónicas entre si, y para comparar individuos con enfermedades respecto a la población general. Pero tienen el inconveniente de que no son sensibles a los cambios y podrían pasar por alto factores clínicos relevantes de la vida relacionados con aspectos específicos de la enfermedad, por lo que no analizan los impactos específicos de la enfermedad ni de sus tratamientos en la CV.

Los instrumentos específicos en cambio, se han diseñado para ser aplicados en patologías específicas o grupos poblacionales concretos. Se orientan hacia un tipo de enfermedad e intentan captar con mayor precisión los cambios clínicos y el impacto de los tratamientos y de las intervenciones sanitarias a través del tiempo. Su mayor capacidad de discriminación y predicción, les hace especialmente útiles para la evaluación de intervenciones terapéuticas en poblaciones con una enfermedad concreta, pero sin embargo no permiten la comparación de CVRS entre pacientes con distintas enfermedades o con más de una enfermedad.

Para valorar de la forma mas precisa posible la CV de un grupo de pacientes con una determinada enfermedad lo ideal sería utilizar un cuestionario genérico que recoja aspectos de la vida cotidiana y un cuestionario específico de enfermedad. La utilización de ambos permitirá la comparación entre poblaciones y la identificación de áreas de problemas para diferentes grupos de pacientes.

Para evaluar la CV de los pacientes celíacos, inicialmente se utilizaron cuestionarios genéricos y posteriormente se comenzaron a elaborar cuestionarios específicos de enfermedad. Hasta la fecha se han elaborado dos cuestionarios específicos de EC en adultos y dos en niños, que posteriormente han sido adaptados para su utilización en otros países mediante el proceso de adaptación transcultural. Este proceso es complejo y no solo consiste en la traducción literal del instrumento a otra lengua, sino que tiene como objetivo conseguir un instrumento equivalente al desarrollado en el país de origen, preservando el contenido semántico del cuestionario original en la nueva lengua a la que se adapta,

y conservando la equivalencia de significados de los cuestionarios entre las distintas culturas.

En el momento de realizar el estudio solo existía un cuestionario de CV específico en niños, el cuestionario holandés CDDUX, mientras que el otro cuestionario específico para niños, se elaboró con posterioridad a la realización de nuestro estudio. Cuando se planificó la realización de nuestro estudio la CVRS de los niños celíacos de nuestro país apenas había sido estudiada, y no existía ningún instrumento de CVRS específico para niños en nuestro medio.

Objetivos

1.- Realizar la adaptación transcultural y evaluar la fiabilidad y validez del cuestionario específico de CVRS elaborado en Holanda (CDDUX), para su utilización en niños celíacos españoles de 8 a 18 años.

2.- Evaluar la percepción de CVRS de un grupo de niños celíacos españoles de 8-18 años y sus padres, utilizando un cuestionario genérico (kidscreen) y el cuestionario específico de EC (CDDUX) previamente adaptado por nuestro grupo y analizar la correlación existente entre ambos cuestionarios.

3.- Identificar la presencia de factores relacionados con la CVRS utilizando ambos cuestionarios.

4.- Comparar los resultados de nuestro estudio con los de otros trabajos publicados.

Metodología

Estudio observacional con recogida de información de forma prospectiva, sobre la CVRS en niños de de 8 a 18 años con EC, utilizando dos cuestionarios de CV, el cuestionario genérico Kidscreen elaborado y validado para su utilización en nuestro medio y el cuestionario específico de enfermedad celíaca (CDDUX) elaborado en Holanda para niños del mismo rango de edad, previamente adaptado transculturalmente y validado por nuestro grupo.

Se invitó a participar en el estudio a los niños con enfermedad celíaca de 8 a 18 años, miembros de la Asociación de Celíacos de Madrid y Sensibles al Gluten (ACy SGM), con el fin de tener una muestra representativa de toda la Comunidad Autónoma de Madrid. Se calculó un tamaño muestral necesario de 222 niños celíacos con edades comprendidas entre 8 y 18 años. Este tamaño se justifica para la variabilidad de los ítems del cuestionario CDDUX y del cuestionario Kidscreen. La desviación estándar mas alta de dichos estudios fue de 22,8. Se estimó para

una precisión del 3% y un nivel de confianza del 95%. Este tamaño muestral permitía cubrir el resto de objetivos.

La primera parte de nuestro trabajo fue llevar a cabo la *adaptación transcultural del cuestionario específico al español en nuestro medio*, para lo cual se contactó con los autores del cuestionario solicitando autorización para utilizarlo. Se efectuó la adaptación transcultural siguiendo la metodología sistemática de traducción-retrotraducción, internacionalmente consensuada. Posteriormente se realizó la validación del instrumento comprobando las propiedades psicométricas del mismo.

Para evaluar la fiabilidad y validez de la versión española del cuestionario CDDUX, se envió la versión española definitiva del CDDUX a todos los niños de 8-18 años miembros de la Asociación de Celíacos y Sensibles al gluten de Madrid de los que se disponía de correo electrónico y sus padres. Para hacer una valoración mas completa de la CV, se envió simultáneamente el cuestionario genérico Kidscreen. Este cuestionario fue seleccionado porque era el único instrumento para niños de 8-18 años, elaborado con la participación de varios países europeos entre los que se encontraba España. Había sido validado con niños españoles de población general de ese rango de edad, por lo que su uso nos facilitaría la comparación de la CVRS de los niños celíacos con la de los niños españoles de población general.

El estudio se realizó a través de internet. Se enviaron los cuestionarios a todos los niños de 8 a 18 años miembros de dicha asociación que tuvieran correo electrónico y a sus padres, a los que se solicitaba contestar por separado para evitar que se influenciaran en las respuestas. Se envió, además de los dos cuestionarios, una encuesta de datos demográficos y otra de datos clínicos que solo se solicitó cumplimentaran los padres para evitar duplicidad de la información. Se envió también un consentimiento informado que debían aceptar antes de poder acceder a los cuestionarios.

Las encuestas se enviaron a final de octubre del 2011 y estuvieron accesibles durante casi dos meses, el tiempo que se precisó hasta conseguir el tamaño muestral deseado. Fueron contestadas de forma anónima por los padres /niños y se almacenaron en una cuenta de correo, siendo procesadas para su análisis estadístico con el programa SPSS 20,0 para Windows. (*Statistical Package for the Social Sciences*.)

El estudio fue evaluado y aceptado por el Comité Ético del Hospital de Fuenlabrada.

Este proyecto ha sido financiado parcialmente por la concesión de ayudas del subprograma de proyectos de investigación en salud, dentro de la acción estratégica de salud Instituto de Salud Carlos III en Diciembre 2012. PI12/01183.

Conclusiones

1.- El cuestionario específico CDDUX es un instrumento válido y fiable para valorar la CVRS de los niños celíacos de 8 a 18 años en nuestro medio.

2.- La percepción de CVRS de los niños celíacos de nuestro estudio y de sus padres, al utilizar el cuestionario específico CDDUX, es neutra cuando consideran vivir con la EC y no les afecta tener la enfermedad ni tener que hablar a otros de ella.

3.- La percepción de CVRS, cuando se utiliza el cuestionario genérico Kidscreen, es positiva en la mayoría de los aspectos generales de la vida, siendo los problemas que más les afectan los relacionados con la economía, la autonomía, la relación con sus amigos y el apoyo social.

4.- Con el cuestionario específico no se encontraron diferencias entre la percepción de CV de los niños y sus padres, sin embargo, con el cuestionario genérico los padres puntuaron peor en la mitad de las dimensiones, aunque las diferencias no fueron relevantes.

5.- Con nuestros resultados se podría establecer que el perfil del niño celíaco con peor CV, cuando se utiliza el cuestionario específico CDDUX, es el que tiene la forma no clásica de la enfermedad, el que presenta dificultades económicas y sociales en el cumplimiento de la dieta, el de menor tiempo de evolución de la enfermedad y aquel que tiene síntomas con las transgresiones. El paciente que tiene mejor CV es el diagnosticado con menos de dos años de edad y el que presenta una buena adherencia a la dieta.

6.- El perfil del niño celíaco con peor CV, cuando se utiliza el cuestionario genérico Kidscreen, es el del niño con más de 12 años al rellenar la encuesta, el de menor tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico, el que presenta dificultades económicas y sociales para realizar la dieta y el que tiene síntomas con las transgresiones. El paciente con mejor CV es el de género masculino y aquel cuya madre tiene un mayor nivel de estudios.

7.- Cuando se utilizan los dos cuestionarios se observa que los principales factores que afectan negativamente a la CVRS son la no adherencia a la dieta, tener dificultades para cumplirla y tener síntomas con las transgresiones.

8.- Existe una mala correlación entre el cuestionario específico CDDUX y el cuestionario genérico kidscreen, ya que valoran aspectos diferentes de la CVRS, siendo necesario utilizar ambos para una evaluación más completa de la CV.

9.-.El cuestionario genérico Kidscreen detecta diferencias en las variables demográficas género y edad al rellenar la encuesta, mientras que el específico detecta las diferencias en las variables clínicas, adherencia a la dieta, forma clínica de presentación y edad al diagnóstico.

10.- La percepción de CVRS de los niños celíacos varía dependiendo del medio en que se estudia. Con el cuestionario CDDUX, los niños celíacos españoles valoran su CVRS mejor que los niños holandeses y peor que los argentinos.

11.- La percepción de CVRS de los niños celíacos de nuestro estudio es mejor que la de los niños españoles y europeos de población general y con enfermedades crónicas, al utilizar el cuestionario genérico kidscreen.

12.- Nuestros resultados sugieren que el correcto cumplimiento de la dieta es decisivo para que el paciente pueda conseguir una buena CV.

I. INTRODUCCIÓN

1.- ENFERMEDAD CELIACA

1.1.- DEFINICIÓN

La enfermedad celíaca (EC) es una enfermedad sistémica mediada por el sistema inmune y ocasionada por el gluten y las prolaminas relacionadas que se produce en individuos genéticamente predispuestos y se caracteriza por la presencia de una combinación variable de manifestaciones clínicas dependientes del gluten, anticuerpos específicos, genética compatible: haplotipos HLADQ2, HLADQ8 y enteropatía.[1] Cursa con una atrofia de las vellosidades intestinales de la mucosa del intestino delgado superior[2] y como consecuencia se produce una malabsorción de nutrientes, cuya repercusión clínica y funcional dependerá de la edad y el estado nutricional e inmunitario del paciente.

El tratamiento consiste en la realización de una dieta sin gluten (DSG) durante toda la vida. La retirada del gluten de la dieta conducirá a la desaparición de los síntomas clínicos y a la recuperación de la mucosa intestinal tras un periodo de tiempo variable, entre uno y dos años en la gran mayoría de los pacientes.

1.2.- EPIDEMIOLOGÍA

Los primeros estudios epidemiológicos mostraban una baja prevalencia de la enfermedad, ya que solo recogían los casos de niños con la forma de presentación clásica. El desarrollo posterior de test serológicos con alta sensibilidad y especificidad, permitió identificar pacientes con síntomas leves, asintomáticos y situaciones asociadas con aumento de riesgo de tener la enfermedad, y de esta forma conocer su prevalencia real, que se estima en torno a 1:100, con un rango entre 0,5-1,26% en estudios epidemiológicos recientes realizados mediante búsqueda activa de casos en población general.[3,4]

Catassi y colaboradores (col.)[5] publicaron en 1996 un estudio de despistaje que permitió identificar la verdadera dimensión de la EC. En una cohorte de 17,201 niños con edades comprendidas entre 6 y 15 años, observaron una prevalencia de enfermedad no diagnosticada de 1 /210 niños. La prevalencia global observada,

incluyendo los casos de EC ya conocidos fue de 1/184, por lo que solo 1 de cada 7 niños eran diagnósticos conocidos (pacientes sintomáticos).

Más recientemente, Mustalahti y col,[6] realizaron un estudio multicéntrico para estimar la prevalencia de la enfermedad en Europa. Participaron 4 países (Finlandia, Alemania, Italia e Inglaterra), registrándose 29.266 individuos, la prevalencia global de EC en niños y adultos fue del 1%. La prevalencia en niños fue de 1,3% en Italia y 1% en Inglaterra, mientras que en adultos de 30-64 años fue de 2,4% en Finlandia, 0,7% en Italia y 0,3% en Alemania, respectivamente. Ivarsson y col[7] realizaron un estudio en el que participaron 13.279 niños suecos y encontraron una prevalencia de 29/1000 y 22/1000 en 2 cohortes nacidos en 1993 y 1997 respectivamente, con un ratio de prevalencia de 0,75 %. En España, los estudios realizados muestran prevalencias de: País Vasco 1/118 en niños menores de 3 años sanos[8], en Madrid 1/220 en niños entre 10 y 12 años[9] y 1/320 adultos,[10] en Asturias 1/389. [11]

Recientemente se ha publicado el primer estudio prospectivo multicéntrico realizado en España para evaluar la incidencia de la enfermedad en nuestro medio.[12] Los datos publicados corresponden al periodo entre Junio 2006 y Mayo del 2007, registrándose una incidencia de 7.9 casos de EC por 1000 nacidos vivos y 54 casos por 100.000 personas/año.

1.3.- PATOGENIA

La patogenia de la enfermedad no se conoce por completo y aún está siendo investigada. Existe una susceptibilidad genética en los individuos afectados para reconocer y potencialmente malinterpretar un antígeno (Ag) alimentario presentado en el tracto gastrointestinal (G-I). Ese Ag reconocido como extraño es la gliadina del gluten del trigo y proteínas homólogas de avena, centeno, cebada. Como consecuencia de una interacción entre los genes de predisposición y determinados factores ambientales se desencadena una respuesta inmune inadecuada frente al gluten y las prolaminas en la mucosa del intestino delgado. [13,14]

Hay una participación tanto de la inmunidad innata como de la inmunidad adaptativa. En las etapas precoces de la enfermedad por alteración de la inmunidad innata se produce una sobre-regulación de la zonulina y un aumento de

permeabilidad en las uniones estrechas intercelulares que normalmente actúan de barrera frente a los Ag alimentarios, lo cual permite a estos Ag introducirse desde el lumen intestinal a la submucosa, donde por estímulo del sistema inmunitario mucoso G-I se activa la inmunidad adaptativa.

La enzima transglutaminasa tisular (TG2) ampliamente distribuida en el organismo tiene un papel fundamental en la patogenia de la enfermedad. En el intestino se encuentra localizada en el borde en cepillo epitelial y en la lámina propia. Esta enzima, que en condiciones normales se encarga de mantener la integridad epitelial, en situaciones de estrés o ante procesos infecciosos se activa modificando los péptidos de la gliadina y mediante un proceso de deamidación transforma los residuos de glutamina en glutamato, con cargas negativas que favorecen la unión de los péptidos tóxicos de la gliadina a un receptor específico HLA DQ-2 y DQ-8 situado en la superficie de las células presentadoras de Ag (CPA). De esta forma la gliadina es presentada como antígeno a los linfocitos T (CD4), que se activan y desencadenan una respuesta inmune celular (Th1), liberándose citoquinas con acción proinflamatoria, principalmente el interferón γ (IFNγ) que estimula a otros mediadores locales como la interleukina 4 (IL-4) y el factor de necrosis tumoral α (TNF-α) responsables del daño directo de la mucosa con la producción de linfocitosis intraepitelial, hiperplasia de las criptas y atrofia de las vellosidades intestinales. Además los linfocitos T activados estimulan a las células B para la producción de anticuerpos (Acs) frente a la gliadina y la transglutaminasa tisular.[15]

La fuerte predisposición genética de la EC se hace evidente al observar la alta tasa de concordancia en gemelos monocigotos (>80%) siendo del 20% en gemelos dicigotos. Además hay una agregación familiar de un 10% entre familiares de primer grado, lo que implica un riesgo veinte veces mayor que la población general.

Los principales factores determinantes de la susceptibilidad genética para la EC son los genes de histocompatibilidad mayor HLA de clase II codificados por la región de histocompatibilidad situada en el brazo corto del cromosoma 6.[16,17]

En la mayoría de las poblaciones estudiadas el 95% de los pacientes expresan el heterodímero HLADQ2 codificado por los alelos DQA1*05 y DQB1*02 tanto en posición *cis* asociados al DR3, como en posición *trans* en heterocigotos DR5/DR7 (siendo esta representación mas frecuente en la cuenca mediterránea). Sin embargo este heterodímero está también presente en el 25-30% de la población general sana.

La mayor parte de los enfermos celíacos con HLADQ2 negativo, son portadores de un segundo heterodímero de riesgo, la molécula HLADQ8 asociada al DR4. Los individuos negativos para ambos tienen una probabilidad extremadamente baja de tener la enfermedad. El hecho de que el 30% - 40% de la población caucásica presente los alelos de riesgo HLADQ2 y tan solo el 1% desarrolle la enfermedad y la existencia de gemelos discordantes para la EC, pone de manifiesto que esta enfermedad es un transtorno multigénico, ya que la expresión de las moléculas HLADQ2 o HLADQ8 es necesaria pero no suficiente para causar la enfermedad. Existen además otros genes implicados en la etiopatogenia cuya contribución a la enfermedad es relativamente pequeña en comparación con la del HLA.[18,19]

1.4.- FORMAS CLÍNICAS Y ENFERMEDADES ASOCIADAS

Las manifestaciones clínicas varían en función de la edad de presentación, siendo mas frecuente el debut con síntomas digestivos en la infancia y con síntomas extradigestivas en adolescentes y adultos.[20]

Un grupo de expertos de la Sociedad Europea de Gastroenterología Hepatología y Nutrición (ESPGHAN) publicó recientemente las nuevas guías para el diagnóstico de la EC.[1]

Estos autores distinguen dos grupos de pacientes según las manifestaciones clínicas que presenten :

1) Síntomas y signos gastrointestinales G-I: diarrea crónica, distensión abdominal, vómitos, dolor abdominal, retraso ponderal, estreñimiento, etc.

2) Síntomas y signos extraintestinales: anemia, talla baja, neuropatía, osteopenia, artralgias, etc). En el adulto los síntomas pueden ser tan variados como infertilidad, abortos recurrentes, parestesias y miopatía proximal.

Tradicionalmente se distinguían cinco formas de presentación: las formas clásica, atípica, silente, latente y potencial; pero en los recientemente publicados ***criterios de Oslo***[21]para definir la enfermedad, se desaconseja el uso de muchos de los términos tradicionalmente utilizados, como EC latente, silente o atípica, que en ciertos aspectos podían resultar confusos. Estos criterios fueron elaborados por un grupo de expertos de siete países revisando los trabajos publicados en la literatura con las definiciones utilizadas hasta entonces (2011). Estos autores agrupan la EC en dos grupos según la presentación clínica de la enfermedad: pacientes asintomáticos y pacientes sintomáticos, que a su vez pueden presentar sintomatología clásica o no clásica (con presencia de síntomas tanto G-I como extraintestinales) y proponen la utilización de los siguientes términos:

- **Forma clásica**

El paciente presenta signos y síntomas de malabsorción. Es necesario que el paciente presente todos estos síntomas para el diagnóstico: diarrea, esteatorrea, pérdida de peso y fallo de medro. Tradicionalmente se equiparaba este término con el de *forma típica*, pero al contrario de lo que se creía inicialmente, estos síntomas no son específicos de la enfermedad, ni a la vista de lo observado en varias publicaciones,[22–25] se trata de la forma mas frecuente, por lo que estos autores aconsejan no utilizar esta definición sino la de forma clásica. Estos pacientes frecuentemente asocian hábito malabsortivo (hipotrofia de masas musculares, distensión abdominal) junto con irritabilidad o alteración del carácter. Suele ser mas frecuente en niños menores de 3 años.

- **Forma no clásica**

Se presenta sin signos ni síntomas de malabsorción, generalmente son pacientes con formas monosintomáticas, que pueden tener síntomas G-I diferentes de la diarrea y la esteatorrea, como el dolor abdominal o el estreñimiento, o bien con síntomas extraintestinales. En los últimos años, gracias a la mayor precisión de

los métodos diagnósticos y al mayor conocimiento de otras formas de presentación de la EC, se ha observado un aumento del diagnóstico de esta forma clínica de enfermedad, siendo incluso mas frecuente que la forma clásica, según indican algunos trabajos recientes.[22–25]

- **Enfermedad celíaca potencial**

Son niños con riesgo aumentado de tener la enfermedad, bien sea porque los anticuerpos (Acs) de la EC son positivos o porque tienen familiares de primer grado con EC, pero con biopsia intestinal normal. En los recién publicados criterios diagnósticos de la EC de la ESPGHAN[1] ya mencionados, se indica que para poder hablar de EC potencial es necesaria la presencia de Acs positivos y estudio genético compatible (HLA), pudiendo estos pacientes desarrollar en el futuro una enteropatía gluten dependiente o no hacerlo.

Los criterios de Oslo desaconsejan utilizar el término *EC latente* que en muchas ocasiones se utilizaba de forma indiferente al de EC potencial y del que había hasta 5 definiciones diferentes según los distintos autores, porque resultaba un término muy confuso.

- **Enfermedad celíaca asintomática**

Son individuos clínicamente asintomáticos a los que se realiza estudio de despistaje de EC por pertenecer a grupos de riesgo (al tener familiares de primer grado con EC o enfermedades asociadas), presentando Acs específicos de EC, estudio genético HLADQ2/8 positivo y biopsia intestinal con atrofia vellositaria. Antes se utilizaba el término *EC silente* para hacer referencia a este grupo de pacientes, pero los criterios de Oslo no consideran este término adecuado, aconsejando utilizar en su lugar el de EC asintomática.

- **Autoinmunidad celíaca**

Se considera este término cuando el paciente presenta positividad de anticuerpos (Acs) antitransglutaminasa (ATG) o antiendomisio (EMA) en al menos 2 ocasiones. En estos casos en práctica clínica esta indicada la realización de una

biopsia intestinal que si muestra atrofia vellositaria será diagnóstica de EC y si la biopsia es normal se tratará de una EC potencial.

- **Transtornos relacionados con el gluten**

Se recomienda utilizar este término para denomina a todas las enfermedades relacionadas con el gluten, como Ataxia, Dermatitis Herpetiforme (DH), Sensibilidad al Gluten no Celíaca y EC.

- **Dermatitis Herpetiforme**

Es la manifestación cutánea de una enteropatía inmune precipitada por la ingesta de gluten.[26] Se caracteriza por la presencia de lesiones urticariales y vesículas muy pruriginosas en la piel de nalgas, codos y rodillas, principalmente. La transglutaminasa epidérmica es el autoantígeno asociado de forma mas estrecha con esta entidad y la ATG IgA es el marcador serológico más sensible de la DH. Una biopsia de piel con depósitos de IgA en las papilas dérmicas será diagnóstica.

Estos pacientes pueden presentar todo el espectro de manifestaciones clínicas de la enfermedad celíaca o ser asintomáticos desde el punto de vista digestivo y tienen una enteropatía de grado variable con atrofia vellositaria en al menos en dos tercios de ellos. Respecto al estudio genético, se asocia con el HLA de forma similar a la EC. La retirada del gluten de la dieta conlleva la desaparición de los síntomas en la mayoría de pacientes, pero a veces precisan añadir al tratamiento un inhibidor de los neutrofilos (dapsona).[27]

Tras un periodo prolongado de DSG, el 47% de los pacientes que precisaron además tratamiento farmacológico pueden suspenderlo y un 15% pueden disminuir la dosis aunque no puedan retirar la medicación.

Su prevalencia es mayor en el norte de Europa, en varones y en el rango de edad entre 30-40 años y varía entre 1.2 a 39.2 por 100,000 y la incidencia entre 0,4-2,6 por 100,000 personas año.

- **Enfermedades asociadas a la EC**

La prevalencia de la EC es mayor en algunas enfermedades que en la población general. Muchas de ellas tienen base inmunológica[28].

Las principales enfermedades asociadas y la prevalencia de EC en dichas enfermedades según las distintas series se indican a continuación:[1] diabetes tipo I (3-12%), hepatitis autoinmune (13%), síndromes como el S. de Williams (9%), S. de Turner (6,5%) y S. de Down (5,5%-12%), nefropatía IgA (4-8%), déficit de IgA (2-8%) enfermedad tiroidea autoinmune (3-7%) y artritis crónica juvenil (1,5%).

- **Familiares de primer grado de pacientes con EC**

Tienen un riesgo incrementado de tener la enfermedad, con una prevalencia según las series entre 4-5% y un 10-20%.[29]

El diagnóstico se realiza por cribado, presentando formas clínicas asintomáticas o monosintomáticas en la mayoría de ocasiones.

1.5.- DIAGNÓSTICO

1.5.1. Test serológicos

Constituyen la prueba inicial para el diagnóstico de la EC. Su desarrollo supuso una revolución en el manejo de la enfermedad. Generalmente se determinan los Acs de tipo inmunoglobulina A (Ig A) por su mayor eficacia en el diagnóstico. Es necesario determinar simultáneamente la IgA sérica total, ya que en caso de déficit de IgA, los Acs pueden ser negativos y no excluir la enfermedad. En ese caso deben determinarse los Acs de tipo inmunoglobulina G (IgG).

1). Los Acs antigliadina (AGA)

Fueron los primeros que se identificaron.[30] Son Acs frente a determinantes antigénicos de la alfa-gliadina. Se determinan mediante técnicas de enzimoinmunoanálisis (ELISA). Se elevan de forma paralela a la ingesta de gluten. Su presencia indica sensibilización al gluten pero no necesariamente lesión

intestinal. No son específicos de la EC, pueden positivizarse en otras enfermedades que cursan con aumento de la permeabilidad intestinal (enfermedad de Crohn, intolerancias alimentarias, síndromes postenteritis) o incluso aparecer en sujetos sanos; sobre todo los de tipo IgG. Por lo tanto, su sensibilidad (S) y especificidad (E) son bajas, especialmente en pacientes mayores de dos años**,** por lo que en la actualidad no se recomiendan de forma rutinaria para la detección de la EC, salvo en niños menores de dos años en los que pueden ser más sensibles que otros tipos de Acs. Además, son mas sensibles para detectar las trasgresiones ocasionales que otro tipo de Acs.

2) Acs antiendomisio (EMA)

La descripción del patrón de los EMA en la DH y en la EC por inmunofluorescencia indirecta (IFI) sobre esófago de mono[31]o sobre cortes de cordón umbilical humano[32] revolucionó el diagnóstico serológico de la EC. Son Acs frente a la transglutaminasa tisular (TG2) situada en el tejido amorfo que rodea las fibras musculares lisas (endomisio tisular). Son los marcadores serológicos mas específicos para la EC (98%), en la actualidad se considera el test ideal para su confirmación. El grado de positividad se correlaciona muy bien con el daño de la mucosa intestinal, pero no tanto con la sensibilización al gluten, por lo que no detectan trasgresiones ocasionales de la dieta y su desaparición tras la retirada del gluten es más lenta que la de los AGA, tardando aproximadamente 6 meses en comenzar a descender. Esta técnica es más cara que la determinación por ELISA y requiere experiencia por parte del profesional que realiza su lectura.

3) Acs antitransglutaminasa tisular (ATG) [33]

Son anticuerpos dirigidos contra la TG2, que ha sido identificada como el principal antígeno de los EMA. Se determinan mediante ELISA y detectan anticuerpos frente a la TG2 recombinante humana. Presentan una excelente correlación con los EMA y tienen como ventajas frente a ellos que al tratarse de un método automatizado no dependen de la interpretación del observador, son más económicos y su sensibilidad es mejor en niños pequeños. Estos marcadores, al igual que los EMA se correlacionan muy bien con el daño de la mucosa intestinal,[34] por lo que su elevación permite identificar los individuos que precisarán biopsia

intestinal. Las concentraciones elevadas de Acs ATG IgA (mas de diez veces lo normal) predicen mejor la atrofia vellositaria que valores bajos. En la actualidad se consideran el test serológico recomendado para el despistaje inicial de la EC, dada su elevada S.

Se correlaciona más con el daño de la mucosa que con la sensibilización al gluten por lo que su papel para valorar las trasgresiones es limitado.

4) Acs anti-péptidos deamidados (anti-PDG)[35]

Los péptidos deamidados de la gliadina tienen un papel fundamental en la patogenia de la enfermedad, son los péptidos tóxicos de la gliadina sobre los que actúa la TG2 favoreciendo su unión al receptor HLA DQ-2 y/ó DQ-8 situado en la superficie de la célula presentadora de antígeno (CPA). La CPA los presenta a los linfocitos T y se desencadena la respuesta inmune produciéndose Acs de tipo AGA, EMA y ATG.

En base a esto, se han desarrollado Acs frente a péptidos sintéticos de la gliadina (anti-PDG). Se determinan mediante ELISA y miden anticuerpos de clase IgA e IgG. Tienen una sensibilidad y especificidad superiores a los AGA nativos, por lo que se utilizan en su lugar. Algunos estudios[36,37] han demostrado que estos Acs son los marcadores mas precoces de la enfermedad ya que primero se produce la respuesta inmune frente a estos péptidos y posteriormente frente a la TG y el endomisio tisular; por lo que su determinación permitirá un diagnóstico en estadío mas precoz de la enfermedad.

Los Acs anti DPG[38] tienen una elevada especificidad, principalmente los IgG por lo que es un test ideal para confirmación de la enfermedad, teniendo su máxima utilidad en la detección de la enfermedad en menores de dos años y en los casos de déficit de IgA.

El grupo de trabajo de la ESPGHAN de EC, [39] revisó las indicaciones de cada uno de los tests serológicos para el diagnóstico de la EC. Estos autores, en base a la evidencia clínica concluyen que los Acs con mayor precisión diagnóstica son por orden de importancia los Acs anti-EMA IGA, seguidos de los anti-TG2 IgA, Acs IgG anti-DGP y acs IgA anti-DGP.

En resumen y a la vista de estos estudios estos autores consideran que:

- Los Acs Anti-TG2-IgA es el test de elección como cribado para la determinación inicial (por su elevada S) en individuos con sospecha clínica de EC.
- Los Acs EMA-IgA son el test de confirmación, para detectar dentro de los que son positivos los que realmente tienen la enfermedad (por su elevada E).
- Los Acs anti DGP-IgG por su elevada especificidad son otro test de confirmación. Su principal utilidad sería para identificar EC en menores de dos años o con déficit de IgA, pero son necesarios más estudios que confirmen estos hallazgos.
- Los acs Anti-TG2-IgG tendrían su utilidad para el diagnóstico en caso de déficit de IgA.

1.5.2.- Diagnóstico histopatológico

El desarrollo de la enfermedad es un proceso dinámico, por lo que el cuadro histológico varía ampliamente dependiendo del estadio clínico de la enfermedad y su gravedad. Los hallazgos más característicos fueron descritos por Marsh [40,41] que establece la siguiente clasificación:

Tipo 0: Lesión preinfiltrativa

Tipo 1: Lesión infiltrativa: Si hay un aumento de LIE como único hallazgo. El ***incremento de los linfocitos intraepiteliales (LIE)*** es el primer y mas sensible hallazgo producido por el gluten en la mucosa intestinal .Se considera significativo el incremento de linfocitos entre 20-40 por cada 100 enterocitos superficiales o en la parte superior de la cripta.

Tipo 2: Lesión hiperplásica: La ***hiperplasia de las criptas,*** con aumento de mitosis en el epitelio de las mismas nos debe alertar hacia el diagnóstico de esta enfermedad; se produce por factores de crecimiento liberados por las células mesenquimales y los LIE.

Tipo 3: Lesión destructiva: ***Atrofia de las vellosidades intestinales*** es la característica histológica mas llamativa y la mas fácilmente reconocible. El cociente normal vellosidad /cripta es mayor de 2,5, si el cociente es menor a esa cifra se considera que existe atrofia vellositaria. Oberhuber propuso una modificación sobre la clasificación de Marsh[42] y dividió el tipo 3 de Marsh en 3 subgupos, según fuera el grado de atrofia vellositaria: **3a leve, 3b moderada y 3c total.**

Según los nuevos criterios diagnósticos de la ESPGHAN[1] en individuo con clínica sugestiva de EC y Acs positivos, un patrón histológico a nivel intestinal con lesiones tipo Marsh 2 o 3 confirmarían el diagnóstico de EC. Pero en el caso de lesiones histológicas leves (Marsh 1), la especificidad es mucho menor y solo un 10% de estos pacientes presentarían EC.[43] El análisis inmunohistoquímico de las biopsias puede mejorar la especificidad en estos casos.

Respecto a los hallazgos histológicos en EC, hay que tener en cuenta que:

- Las lesiones son parcheadas[44] y a veces solo existe lesión en bulbo duodenal,[45] por lo que deben tomarse varias muestras, al menos 4 biopsias de segunda o tercera porción duodenal y 2 muestras de bulbo duodenal.
- La interpretación será diferente dependiendo de la orientación de las muestras y de la interpretación del anatomopatólogo
- Los hallazgos no son específicos de EC pudiendo aparecer en otras patologías como Giardiasis, Alergia a proteinas vacunas en menores de dos años, Sprue tropical, infección por Helicobacter Pylori, etc.

1.5.3.- Nuevos criterios diagnósticos de la EC. ESPGHAN 2012[1]

El mejor conocimiento del mecanismo inmunopatogénico y la aparición de test serológicos cada vez más específicos motivaron que la ESPGHAN elaborase las nuevas guías basadas en la evidencia científica sobre las recomendaciones para el diagnóstico de la enfermedad.

En ellas se habla de esta enfermedad como de un trastorno multisistémico que puede afectar a individuos de cualquier edad y se destaca el papel de la genética en la etiopatogenia de la EC y como parte fundamental del diagnóstico.

Según estos autores deberían realizarse las pruebas de detección de la EC en dos grupos de pacientes:

- Niños y adolescentes con signos o síntomas sugerentes de EC

La mayor novedad que aportan estas guías es que podría establecerse el diagnóstico de EC sin necesidad de realizar biopsia intestinal en niños y adolescentes con síntomas sugestivos de EC si el título de Acs anti- TG2 es diez veces superior a lo normal, los EMA son positivos y el estudio genético HLA-DQ es compatible.

- Niños y adolescentes asintomáticos con riesgo de EC: familiares de primer grado con EC y enfermedades asociadas

Se recomienda la realización en primer lugar del estudio genético HLADQ2/DQ8, siempre que esté disponible. La negatividad de este estudio haría improbable el diagnóstico de EC y no sería necesaria la determinación de Acs. Si no puede realizarse el estudio genético se deben realizar los test serológicos en primer lugar, siendo preferible realizar este estudio cuando el niño tenga una edad superior a los dos años de edad.

Si el estudio genético es positivo se determinarían los Acs anti TG2 IgA junto con la IgA total. Si los Acs son negativos la enfermedad es improbable aunque es posible que el paciente la desarrolle en una fase posterior de la vida, por lo que algunos expertos recomiendan repetir los Acs cada dos o tres años o antes si aparecen síntomas.

En este grupo no puede obviarse la realización de una biopsia intestinal para confirmar el diagnóstico. Se realizará cuando el título de Acs ATG IgA sea más de tres veces lo normal; pero si el título de Acs está por debajo de estas cifras, debe confirmarse su positividad mediante los Acs EMA IgA antes de realizar la biopsia

intestinal. Si los EMA IgA son positivos, se reforzaría la sospecha diagnóstica y se realizaría la biopsia intestinal, pero si fueran negativos, sería aconsejable la vigilancia y repetición de Acs cada tres a seis meses.

1.6.- TRATAMIENTO

1.6.1. Dieta sin gluten

El único tratamiento de la enfermedad es la realización de una DSG que debe mantenerse toda la vida.[46,47] El gluten es una fracción de las proteínas de los granos de los cereales, estas proteínas son las prolaminas, y reciben diversos nombres en función del cereal, se denominan gliadinas en caso del trigo, secalinas en el centeno, hordeínas en la cebada y aveninas en la avena. Las prolaminas tienen un alto contenido en residuos de prolina y glutamina, con fragmentos tóxicos que estimulan una respuesta inmune inadecuada, lesiva para la mucosa intestinal de los EC. El tratamiento supone por tanto, la retirada de la dieta de cereales con alto valor nutritivo y sus derivados, que constituyen una parte importante de la alimentación de los países occidentales. En estudios recientes se ha puesto en entredicho la toxicidad de la avena,[48] que tradicionalmente se incluía en este grupo, siendo necesarios más estudios que confirmen esta hipótesis.

La detección del gluten contenido en los alimentos es un procedimiento complejo y costoso, siendo en la práctica difícil obtener alimentos totalmente exentos de gluten. El Codex alimentarium o "código de los alimentos", ó conjunto de estándares, códigos de prácticas, guías y otras recomendaciones relativas a los alimentos, su producción y seguridad alimentaria bajo el objetivo de la protección del consumidor, reconocido internacionalmente, refiere en sus recomendaciones sobre el contenido de gluten máximo que puede tener un alimento para considerarlo como sin gluten, que tenga menos de 20 partes por millón (ppm) de gluten (20 mg/kg), si se trata de un alimento naturalmente exento de gluten y menos de 200 ppm para los alimentos elaborados con almidón de trigo.[46,49] Aunque realmente se desconoce que cantidad máxima de gluten puede consumir un paciente celíaco sin perjuicio para su salud, la mayoría de los autores están de acuerdo en que las cantidades seguras se encuentran entre 10 y 50 ppm.[20] El

objetivo ideal sería la elaboración de productos completamente exentos de gluten, pero no es tarea fácil, ya que la detección del gluten de los alimentos muy elaborados es muy compleja y su realización conllevaría el encarecimiento de los productos sin gluten.

El cumplimiento de la dieta está dificultado por el incorrecto etiquetado de los alimentos, que en muchas ocasiones no especifica la cantidad de gluten contenida.[50] Además de la etiqueta estos productos han de llevar un logotipo: una espiga barrada para todos los países europeos. En España es la Federación de Asociaciones de Celíacos de España (FACE) quien controla el buen uso de este logotipo.

A veces puede producirse la ingesta inadvertida en productos como derivados cárnicos, salsas, dulces y medicamentos, por lo que es importante tener adecuada información al respecto para evitar errores. Una de las funciones de FACE es confeccionar anualmente una lista de alimentos aptos para celíacos en la que se recogen marcas y productos cuyos fabricantes han comunicado a FACE la ausencia de gluten en los mismos. Este listado de productos tiene carácter informativo y facilita la elección de productos por parte del consumidor.

Otras veces puede producirse contaminación cruzada, cuando en el proceso de preparación de alimentos se mezclan productos con gluten con productos sin gluten.

Tras iniciar la DSG, la recuperación de la lesión intestinal no se produce de manera inmediata, sino que puede tardar en producirse más de un año en los niños y hasta dos años en los adultos.

1.6.2.- Adherencia a la dieta sin gluten

La adherencia a la dieta sin gluten es la clave del éxito del tratamiento y de la prevención de posibles complicaciones. Según la opinión de varios autores, los pacientes que no realizan la dieta tienen mayor riesgo de desarrollar enfermedades autoinmunes u otras posibles complicaciones como osteopenia, osteoporosis, infertilidad, abortos de repetición e incluso procesos neoplásicos.[51,52]

La relación con otras patologías, como el linfoma intestinal y la no adherencia a la dieta no es tan clara como en el caso de las enfermedades previamente referidas.[53,54,55]

El cumplimiento de una dieta durante toda la vida no siempre es fácil. La falta de cumplimiento puede deberse a causas involuntarias o voluntarias.

- **Transgresiones involuntarias**

Ingesta inadvertida: por un incorrecto etiquetado de los alimentos o el desconocimiento de que determinados alimentos como embutidos, patés y productos cárnicos pueden contener gluten.[48]

Contaminación cruzada: existe la posibilidad de que alimentos libres de gluten puedan, en algún momento, mezclarse con esta proteína. Al suceder esto, los alimentos dejan de ser aptos para los celíacos. Este proceso se llama contaminación cruzada con gluten y puede producirse básicamente en dos lugares, en las fábricas de alimentos (almacén de productos con y sin gluten juntos o bien contaminación por manipulación) y en el domicilio o si la comida se realiza en lugares públicos como colegios, restaurantes, etc. (contaminación por manipulación incorrecta).

- **Transgresiones voluntarias**

Por lo general la mayoría de los pacientes celíacos realizan la dieta sin gluten de forma adecuada y solo realizan transgresiones voluntarias de forma ocasional. Las causas por las que se realizan son varias, entre ellas destacan:

- ***Motivos económicos:*** el elevado precio de los productos sin gluten y en ocasiones el difícil acceso a los mismos puede contribuir al no cumplimiento de la dieta.[56,57] Barratt S y col [58] observaron que los pacientes con mayor nivel socioeconómico y cultural tenían menos dificultades para hacer frente a la dieta y a las dificultades que conlleva su cumplimentación.

- ***Inseguridad para comer fuera de casa:*** dada la dificultad para encontrar productos sin gluten en estas circunstancias.[56,59]

- ***Desconocimiento:*** en ocasiones el paciente toma gluten por desconocimiento de las consecuencias que puede tener ingerirlo como ocurre en las personas diagnosticadas por cribado que no han presentado síntomas mientras realizaban una dieta normal y que no tienen conciencia de enfermedad ni comprenden la necesidad de realizar una dieta especial. La adecuada información médica es fundamental para aumentar la adherencia de estos pacientes a la dieta.[60]

- ***Motivos sociales***: en otras ocasiones, sobre todo en adolescentes, la falta de adherencia se debe a la necesidad de no sentirse diferentes a los demás al tener que realizar una dieta restrictiva. No es infrecuente que en estas situaciones prefieran, a veces, tomar productos con gluten a tener que explicar a los demás su enfermedad y los motivos por los que no pueden tomar dichos productos.[50,60,61]

- ***Palatabilidad:*** asimismo, el peor sabor de los productos sin gluten[55] y la escasa disponibilidad de los mismos en determinadas situaciones puede influir en el mal cumplimiento.[57]

Es difícil conocer realmente el grado de adherencia al tratamiento y los resultados son dispares de unos estudios a otros. Hall y colaboradores[62] publicaron en 2008 una revisión sistemática de los estudios publicados entre 1980 y 2007 en los que se intenta evaluar el grado de adherencia a la DSG en celíacos adultos y los factores que influyen en la misma. Destacan estos autores lo difícil que resulta comparar los resultados de los distintos estudios, ya que no existe una definición estandarizada de lo que se considera adherencia al tratamiento. Unos categorizan el grado de cumplimiento en estricto, parcial, escaso y no adherencia; otros consideran adherencia si realizan la dieta de forma adecuada la mayor parte del tiempo. Y en otros casos se considera la adherencia según el resultado de los test serológicos o la histología. Según unas u otras definiciones el porcentaje de adherencia varía entre el 44 y 90%.

En los últimos años algunos autores han elaborado cuestionarios con el fin de intentar medir de una forma objetiva el grado de adherencia a la dieta tanto en adultos Leffler y col[63] como en niños. [57]

Nuestro grupo realizó un estudio piloto en colaboración con la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de Madrid (ACySGM) en el año 2008 en el que se realizó una encuesta voluntaria a pacientes, niños y adultos, pertenecientes a dicha asociación y que fue presentado en el Congreso Nacional de Gastroenterología Pediátrica (Mayo 2009)[64] y en el 2º Congreso de la Sociedad de EC (Tenerife 2010).[65] Se les preguntó sobre diversos aspectos de la enfermedad, entre ellos la adherencia a la dieta. Contestaron la encuesta 1038 celíacos, referían realizar transgresiones 244 pacientes (23,5 %), con una diferencia significativa entre adultos (33,6%) y niños (18%). Realizaban una media de 5,3 transgresiones al año (8,8 los adultos frente a 1,84 los niños; $p<0,01$). Las causas de las transgresiones fueron: la realización voluntaria, el desconocimiento, descuido y los motivos sociales. Al comparar ambos grupos de edad, las motivaciones de los niños para realizarlas fueron con mayor frecuencia por descuido mientras que los adultos las realizaban de forma voluntaria y por motivo social. El 18% de pacientes respondió más de una causa. Las transgresiones asociaron síntomas en el 70% de los casos con diferencia significativa entre adultos (81%) y niños (48%); $p<0,01$. El 82% de los niños celíacos realizaba una dieta estricta sin gluten, cifra inferior a la de un estudio de similares características realizado en Canadá,[66] en la que esta cifra ascendió al 95%.

Factores asociados a la adherencia al tratamiento

Se han evaluado distintos factores probablemente relacionados con la adherencia como edad, edad al diagnóstico, duración de la enfermedad, género, formas de presentación clínica, seguimiento de la enfermedad, información proporcionada por los profesionales sanitarios, conocimiento de la enfermedad, gravedad de los síntomas cuando se realizan trasgresiones, accesibilidad a los productos sin gluten, ser miembro de una asociación de EC, insuficiente apoyo social (dificultad de socialización) y factores económicos con resultados dispares entre los diversos estudios.

- **Edad :**

No hay muchos estudios que, como el nuestro, analicen de forma simultánea la adherencia en niños y adultos. Nuestro grupo observó una adherencia más

estricta en los pacientes pediátricos que en los adultos.[64,65] Parece lógico pensar que la adherencia sea mejor en niños, hay diversos factores que podrían influir en el mejor cumplimiento de la dieta en los pacientes pediátricos, entre los que destacan:

- La mayor sintomatología al diagnóstico y la desaparición de los síntomas al iniciar la DSG hace que tanto los niños como sus padres tengan mayor conciencia de enfermedad y estén más motivados en el cumplimiento.

- El cambio de hábitos dietéticos menos dificultoso de realizar en edades tempranas de la vida que en la adolescencia o en la vida adulta en que los hábitos están más arraigados.

- El seguimiento más estrecho en consultas de los pacientes pediátricos que de los adultos.

- La mayor preocupación de los padres por el correcto cumplimiento de la dieta de sus hijos.

- El mayor apoyo social por parte de las instituciones a la alimentación en la infancia. Desde los colegios y guarderías se potencia que los niños realicen una dieta sin gluten de forma adecuada y se intenta facilitar la integración de los niños con alergias o intolerancias alimentarias (menús sin gluten, menús para alérgicos a alimentos, etc). Mientras que en otros ámbitos, por ejemplo cuando comen en establecimientos públicos, todavía no existe una oferta de productos sin gluten adecuada ni se conoce lo suficiente la enfermedad, lo cual dificulta la cumplimentación de la dieta por parte de los EC adultos.[59]

Adherencia en adolescentes

Hay autores que afirman que los adolescentes y los pacientes detectados por cribado son los que muestran peor adherencia.[50,55,60,61,67] Los estudios realizados en adolescentes observan una adherencia al tratamiento que oscila entre 50-80%.[68,69] Entre los factores que se han relacionado con la peor cumplimentación de la dieta en adolescentes destacan:

- La rebeldía natural característica de esta edad, que conlleva mal cumplimiento de los tratamientos en general y de la DSG en particular. [61]
- La inadaptación a la enfermedad y la no comprensión de la necesidad de realizar una dieta de por vida.
- La menor sintomatología que presentan al diagnóstico y, en ocasiones, la detección por cribado que conlleva una menor comprensión de la enfermedad y motivación para realizar la DSG.[60]
- La mayor autonomía a estas edades y escasa supervisión por adultos.
- La mayor necesidad de ser aceptados socialmente y no ser considerados diferentes, lo que les lleva en ocasiones a no cumplir la dieta. Errichiello y col[50] observaron menor adherencia en adolescentes, impactando la enfermedad en la capacidad de integración social y en la autoestima de estos pacientes.
- El reparo a tener que explicar lo que es la enfermedad y la necesidad de realizar una dieta sin gluten.[61]
- Menor apoyo social y mayor problemática por tener que comer fuera de casa (institutos, restaurantes, etc). MacCulloch y col [57] observaron una menor adherencia en adolescentes cuando cenaban fuera de casa, atribuyendo la falta de adherencia a la escasa disponibilidad de productos sin gluten y a la presión que sienten cuando salen fuera.
- La mayor dificultad para cambiar los hábitos alimentarios previamente establecidos. Aunque Mayer y colaboradores[70] observaron que no solo eran malos cumplidores de la dieta los adolescentes recién diagnosticados, sino que aquellos diagnosticados en la infancia precoz también cumplían peor la dieta y eran menos disciplinados en la adolescencia.
- El desconocimiento de las consecuencias de no realizar de forma adecuada la DSG, aunque hay estudios en adultos que comunican transgresiones en pacientes con suficiente información sobre la EC aún sabiendo las consecuencias de no realizar la dieta.[71]

- **Edad al diagnóstico:**

Hay estudios que no encuentran ninguna relación,[63] mientras que otros, como los de Ciacci y col[72,73] observaron que la menor edad parecía

correlacionarse con una menor adherencia. El seguimiento durante veinte años de 29 celíacos suecos mostró una mayor adherencia en los diagnosticados antes de los cuatro años (80%) que en los diagnosticados con más de cuatro años (36%).[74] En otro estudio realizado en Francia y Bélgica,[75] menos de la mitad de adultos con EC seguían una dieta estricta sin gluten durante más de un año tras el diagnóstico. Hall y col [62] detectaron un peor cumplimiento en los adultos diagnosticados en la infancia respecto a los diagnosticados en etapas posteriores de la vida.

- **Duración de la enfermedad**

Fabiani y col[60] observaron en adolescentes un mejor cumplimiento al año que a los cinco años, tanto si habían sido diagnosticados por cribado como si eran sintomáticos al diagnóstico. Asimismo, Hall y col[62] concluyeron que la adherencia era menor a mayor tiempo de evolución de la enfermedad. Sin embargo, otros autores [57] no encontraron relación entre el tiempo transcurrido desde el diagnóstico y el grado de adherencia.

- **Género**

No se ha evidenciado una asociación consistente entre el género y la adherencia a la dieta.[50,57,71–73,76]

- **Forma de presentación clínica**

Ciacci y col[73] en adultos y Fabiani y col[60] en adolescentes encontraron relación entre el patrón de presentación clínica y la adherencia. Estos últimos autores observaron que los adolescentes diagnosticados por cribado cumplían peor el tratamiento que los que habían sido diagnosticados por formas clásicas de la enfermedad. Menos del 25% seguía una dieta estricta y el 23% había abandonado por completo la dieta a los 5 años. Sin embargo, la mayoría de estudios en adultos no encuentran esta asociación.[62,63]

- **Seguimiento de la enfermedad**

Hall y col [62] encontraron relación entre la realización de un seguimiento estrecho en consultas y el mejor cumplimiento de la dieta. Leffler y col[63] observaron que la mala información recibida por el personal sanitario y el escaso seguimiento de su enfermedad son factores que dificultaban la adherencia. En el estudio realizado por nuestro grupo,[64,65] el 94,5% de los encuestados acudía a revisiones médicas con una frecuencia y periodicidad significativamente mayor en niños que en adultos, siendo el porcentaje de trasgresiones casi el doble en adultos que niños. No podemos concluir que la causa única del mayor porcentaje de trasgresiones fuera el menor seguimiento de la enfermedad, aunque posiblemente sea un factor contribuyente.

- **Relación médico-paciente**

Pietzak y col[55] y Butterworth y col[77] encontraron una mejor adherencia al tratamiento en los pacientes que tenían una buena relación médico-paciente y realizaban un seguimiento periódico en consultas.

- **Información proporcionada por los profesionales sanitarios**

Algunos autores como Errichielo[50]y Pietzak,[55] afirman que la correcta información proporcionada al paciente por parte de los profesionales sanitarios (gastroenterólogo infantil, nutricionista, pediatra, médico de familia, etc) y la información obtenida a través de las Asociaciones de Celíacos, o a través de internet, son claves para facilitar el cumplimiento. Lamontagne [78] y Wylie [79] hallaron en sus estudios una menor adherencia en los pacientes que no tenían confianza en la información proporcionada por el médico. Butterworth y col[77] observaron que los pacientes que realizaban más transgresiones se mostraban mas insatisfechos con la información proporcionada por los profesionales sanitarios. Hall y col[62] observaron que los factores relacionados con una mejor adherencia eran el seguimiento médico, proporcionar información adecuada al paciente y ser miembro de una asociación de EC. Sin embargo, otros estudios no

encuentran asociación entre la información proporcionada por los sanitarios y la adherencia.[72,73]

- **Conocimiento de la enfermedad**

Leffler y col[63] encontraron un peor cumplimiento en aquellos que no tenían suficientes conocimientos acerca de la enfermedad, lo que no implica necesariamente que los peores cumplidores tengan menos conocimiento de la misma mientras que Hall y col [62] no observaron esta relación.

- **Gravedad de los síntomas al realizar trasgresiones**

Aunque algunos estudios como los publicados por Mustalahti,[80] Viljamaa [81] y Johnston[82] han relacionado la ausencia de síntomas con las transgresiones con una menor adherencia, no hay suficiente evidencia científica que permita confirmar esta relación.

- **Accesibilidad a los productos sin gluten**

Hall y col, [62] no encontraron relación entre la accesibilidad a los productos sin gluten y el grado de adherencia, en la revisión sistemática de los estudios publicados hasta el 2008. En un estudio posterior, McCulloch y col[57] observaron, entre los factores que dificultaban la adherencia, la escasa disponibilidad de productos sin gluten y los problemas derivados de un incorrecto etiquetado de los mismos.

- **Ser miembro de una asociación de EC**

Parece que existe una mejor adherencia a la dieta en los pacientes miembros de asociaciones de celíacos,[72,73,77] en probable relación con una mejor información recibida y con el hecho de que los pacientes que pertenecen a asociaciones están más preocupados por su enfermedad y por realizar correctamente la dieta. Un dato unánime en los distintos estudios y en todas las edades es la excelente valoración atribuida a la información proporcionada por las asociaciones de celíacos, que generalmente recibe la mejor valoración, seguida de

la obtenida en otros medios, como internet, mientras que la proporcionada por el personal sanitario es la peor considerada.[63,66,83]

En nuestro estudio también se evidenció que la información proporcionada por la ACM era significativamente mejor valorada que la proporcionada por el personal sanitario.

- **Nivel socio-cultural**

Algunos estudios han observado una correlación positiva entre la adherencia al tratamiento y la mejor educación recibida. [56,58,72,73]

- **Apoyo social**

En una cohorte de EC adolescentes y adultos jóvenes, aquellos con problemas de integración escolar, con pobres relaciones sociales o con problemas familiares realizaban más transgresiones dietéticas que los que tenían una adecuada integración social y entorno familiar, [50] en este estudio el principal predictor del cumplimiento de la dieta fue la adecuada integración escolar. Hall y col[62] observaron que los pacientes con peor adherencia a la dieta eran los que tenían dificultades para realizar la dieta (en los viajes, eventos sociales, en el trabajo, y en general, al comer fuera de casa).

- **Factores económicos**

El elevado coste de los productos sin gluten, la falta de financiación gubernamental y el difícil acceso a estos productos en muchos países, dificulta en ocasiones el cumplimiento de la dieta.[56,58,84]

1.7. SEGUIMIENTO

Tras confirmar el diagnóstico se iniciará una DSG, tras lo cual se producirá la mejoría sintomática a partir de las 2 semanas de inicio de la dieta y la normalización de los Acs en un plazo de unos 12 meses. Si la evolución es buena,

es decir, si desaparecen los síntomas y se normalizan los Acs en el plazo de tiempo considerado tras retirar el gluten de la dieta, no es necesario repetir la biopsia intestinal en la evolución. Pero en aquellos casos en los que persiste la clínica a pesar de la DSG y/o los Acs no se negativizan, debe plantearse la posibilidad de que el paciente esté realizando transgresiones dietéticas y si no es así, repetir la biopsia intestinal.

2- IMPACTO DE LA EC EN LA CALIDAD DE VIDA DEL PACIENTE CELÍACO

El diagnóstico de la EC, al igual que ocurre en cualquier enfermedad crónica, supone un impacto en la calidad de vida (CV) del paciente. La naturaleza crónica de la enfermedad junto con las limitaciones impuestas por la necesidad de tener que seguir una dieta restrictiva como la dieta sin gluten, las numerosas visitas médicas, el riesgo de tener enfermedades asociadas y las potenciales complicaciones de la enfermedad son un conjunto de factores que van a tener una importante repercusión psicosocial en el paciente y que, en muchas ocasiones, puede tener un impacto negativo en su CV.
Fera y col[85] evaluaron los trastornos afectivos relacionados con la EC observando que los problemas psicológicos evidenciados en estos pacientes se producen como mecanismo de adaptación a la enfermedad, más que tratarse de enfermedades asociadas a la misma.

La mayoría de los estudios realizados en pacientes pertenecientes a sociedades nacionales de celíacos demuestran que, aunque el celíaco experimenta una mejoría de su calidad de vida tras iniciar la dieta exenta de gluten, mantiene puntuaciones inferiores a la población general.[60,78,86,87]

Otros estudios realizados fuera del ámbito de las asociaciones de pacientes también confirman el efecto negativo que supone sobre el estilo de vida de estos pacientes el tener que realizar una DSG.[88–91]

Sin embargo, otros autores no han observado que la CV de los pacientes que realizaban una DSG fuera peor que la de la población general, [73,81] ni tampoco según refieren Warner y col[92] que fuera diferente a la de niños con otras

enfermedades crónicas. Estos últimos autores, observaron una CV similar en niños celíacos que realizaban correctamente la dieta respecto a niños con otras enfermedades crónicas pareados por edad, género, educación y estatus social. Sin embargo, al comparar un grupo de celíacos que cumplía la dieta correctamente con otro que no la cumplía, observaron que los no cumplidores presentaban peor CV, más problemas físicos, familiares y en su tiempo libre y un mayor impacto de la enfermedad sobre su CV respecto a los cumplidores.

Los pacientes sintomáticos al diagnóstico experimentan una mejoría en sus síntomas tras el inicio de la DSG. Parece lógico pensar que mejore su CV, ya que experimentan una mejoría en su estado físico y en su salud. Sin embargo, aquellos con escasos síntomas al diagnóstico y los detectados por cribado no perciben una clara mejoría tras el inicio de la dieta, lo que puede generar situaciones de rebeldía y negación de la enfermedad, produciendo un impacto negativo en su CV.[60] Hay estudios que encuentran una peor CV en estos pacientes, [93,94] mientras que otros no encuentran diferencias entre individuos sintomáticos al diagnóstico y los detectados por cribado.[80] Viljamaa y col [81] tampoco las encontraron en un estudio realizado a los 14 años de iniciada la DSG en pacientes detectados por cribado y en pacientes sintomáticos al diagnóstico, siendo su CV similar a la de la población general. Aunque los síntomas desaparezcan con la dieta, el individuo tiene que cambiar en muchos aspectos su estilo de vida, lo que no siempre resulta fácil, especialmente en los pacientes adultos, que tienen sus hábitos alimentarios más establecidos. Esto genera conflictos principalmente en los estadios iniciales de la enfermedad.[95] Por otra parte, las relaciones sociales de los pacientes con EC, se pueden ver dificultadas por el escaso conocimiento de la enfermedad y la escasa conciencia de enfermedad. Si a esto unimos la necesidad del paciente de no sentirse diferente a los demás (como ocurre en los adolescentes), es frecuente que prefieran no realizar la dieta cuando comen fuera o en las reuniones sociales, a tener que explicar a otros su enfermedad.[50,60,61] Si a esto añadimos el difícil acceso a los productos sin gluten cuando comen viajan, o si comen fuera su domicilio y el coste económico de los mismos, es fácil deducir que el cumplimiento no es sencillo.[56,59,86] Todos estos factores repercuten de forma negativa en la CV del paciente y su familia.

A continuación se comentan los principales estudios que valoran la repercusión de la EC en los niños. Rashid y col[66] en Canadá, observaron que la EC repercutía negativamente en la CV del 10-20% de los niños entrevistados. Van Doorn y col[87] en Holanda observaron que los niños con EC valoraban su CVRS significativamente peor que los niños sanos de la población de referencia. Van Koppen y col [96] intentaron evaluar si la forma de presentación clínica afectaba su CV, pero no encontraron que fuera peor en los niños sintomáticos al diagnóstico que en los detectados por cribado, ni a corto ni a los 10 años de seguimiento.

Estudios más recientes, como los realizado por Biagetti [97] y Skjerning [98] que evaluaron la CVRS de niños celíacos con métodos de investigación cualitativa, observaron un impacto negativo de la enfermedad en la CV de estos pacientes. Estos autores destacan que los métodos clásicos posiblemente no permitan identificar los aspectos psicosociales del tratamiento de la EC que pueden afectar negativamente en su CV.

Mientras que otros autores no encontraron que la CV de los niños celíacos se viera afectada por tener la EC.[99–101] Bystrom y col[99] observaron que la percepción de la CV era mejor en los niños con EC que en niños con otras enfermedades crónicas. Nordyke y col.[100] observaron, en un grupo de celíacos adolescentes diagnosticados por cribado, una CV similar a la población general, tanto al diagnóstico como tras un año de DSG. Myléus y col[101] no encontraron que la CV de pacientes celíacos italianos detectados por cribado fuera distinta en estos niños previo a conocer el diagnóstico de la enfermedad, a la de los niños de la población general ni a la de otros niños con EC sintomática al diagnóstico que cumplían la dieta de forma adecuada.

Aunque en estos estudios hay resultados dispares, los hallazgos observados nos permiten deducir que la relación entre CV y el cumplimiento de la dieta es compleja. Para comprender mejor la relación entre la CV y esta enfermedad es necesario conocer el concepto de CV y los instrumentos que permiten su medida, todo lo cual se describe a continuación.

3.- CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD

3.1.- CONCEPTO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD (CVRS)

La Organización mundial de la salud (OMS) define la CVRS,[102] como el efecto funcional que una enfermedad y su tratamiento producen sobre un paciente tal y como el mismo percibe la enfermedad en los distintos ámbitos de su vida, tanto físico como emocional o social. Permite evaluar desde la propia perspectiva del paciente el impacto de la enfermedad sobre su vida cotidiana. Es un concepto multidimensional que considera que la salud no implica solo la ausencia de enfermedad, sino que también se asocia con otros factores.[103] El estado de salud-enfermedad se concibe a partir de la percepción subjetiva del individuo, que se encuentra inmerso en un sistema de valores, creencias y costumbres, desde donde se proyectan sus objetivos, expectativas y preocupaciones.[104] Este concepto es por lo tanto personal y diferente para cada persona, por lo que individuos con la misma enfermedad dependiendo de diversos factores como son su salud física, su estado psicológico, su nivel de independencia, las relaciones sociales, su religión y sus creencias personales, afrontarán de forma diferente la enfermedad y su CVRS será por tanto diferente. Incluso en un mismo individuo, en distintos momentos de su vida, la percepción sobre su que tienen de su CV será cambiante dependiendo de su estado emocional.

En 1995 este organismo creó un grupo multicultural de expertos en Calidad de Vida (Grupo WHOQOL) [103] que estableció una serie de puntos de consenso, en relación a las medidas de calidad de vida relacionada con la salud, que han sido ampliamente aceptados por diversos grupos de investigadores. Según estos expertos las medidas de la CVRS deberían ser:

1. Subjetivas: De forma que recojan la percepción subjetiva del impacto de la enfermedad sobre el paciente, que está influenciado por sus experiencias, creencias y expectativas.

2. Multidimensionales: Que abarquen los diversos aspectos de la vida del individuo: físico, emocional, social, interpersonal, etc.

3. *Incluir sentimientos positivos y negativos.*

4. *Registrar la variabilidad en el tiempo:* La edad, la etapa vital del individuo (niñez, adolescencia, adulto jóven, adulto mayor) y el estadío de la enfermedad que se padece, ya que en función de estos la apreciación de los aspectos que se valoran puede ser diferente.

Hay 5 grupos prioritarios a los que se debería realizar una evaluación de carácter internacional del nivel de CV que son los pacientes con enfermedades crónicas, ancianos, niños y adolescentes, enfermos mentales y sujetos con deterioro sensorial.

3.2.- CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN LA INFANCIA Y ADOLESCENCIA.

En la infancia la CV no está determinada por los mismos valores que en los adultos y el concepto de salud se modifica a la vez que se produce la maduración del niño.[105,106] En esta etapa se produce el desarrollo del individuo y se adquieren numerosas dimensiones que darán lugar a etapas de mayor estabilidad. Evolutivamente el niño irá alcanzando una identidad propia, aceptará su imagen corporal, se independizará del núcleo familiar, se producirá un ajuste a las demandas de la sociedad y se interiorizará un sistema personal de valores. Por tanto, su percepción de la CVRS es especialmente dinámica y cambiante en las distintas etapas de su vida. Son especialmente vulnerables y precisan una adaptación continua en todas las fases de su desarrollo.[107]

La percepción de CV en la infancia refleja el punto de vista del niño o de su familia acerca del impacto de la enfermedad en su vida cotidiana, teniendo en cuenta diferentes factores y no sólo los relacionados directamente con el estado o la gravedad de la enfermedad.

3.3.- INSTRUMENTOS DE MEDIDA DE LA CVRS

La medida de la CVRS se basa en la percepción individual del impacto de los factores médicos y no médicos sobre la función física, mental y social, así como en el concepto de percepción global de bienestar [104] y tiene gran utilidad para evaluar las intervenciones sanitarias.

La complejidad del estudio de la CV, viene dada por el elevado número de instrumentos de medida disponibles en la actualidad, por la dificultad de clasificarlos en categorías y por la falta de consenso sobre el concepto de CV.

La mayoría de instrumentos de medida de la CVRS están construidos siguiendo un ***modelo psicométrico*** que se basa en la capacidad del individuo para discernir entre estímulos de diferente intensidad. Los más ampliamente utilizados son los ***cuestionarios de CVRS.***

3.3.1. CUESTIONARIOS DE CVRS

La medida de la CVRS se obtiene a partir del análisis de las respuestas de los individuos a un cuestionario estandarizado que comprende distintas dimensiones. Cada aspecto de la CVRS está representado por una *dimensión*. Cada dimensión se construye a partir de aspectos de la experiencia que se pretende medir. Las distintas dimensiones deben incluir todas las áreas de la vida impactada por la enfermedad o su tratamiento: física, social, psicológica y espiritual. Cada dimensión puede estar constituida por una o mas *preguntas, ítems* y cada una de ellas tiene distintas opciones de respuesta, generalmente entre tres y cinco, entre las que el entrevistado debe elegir. Los niveles de respuestas categorizados en estas dimensiones se diseñan para cuantificar la CV. La puntuación del individuo en cada una de las dimensiones incluidas en el cuestionario puede generar un perfil de su estado de salud. Cuando un instrumento da una puntuación para cada dimensión se suele denominar «perfil», mientras que cuando da una puntuación global para el instrumento se suele denominar «índice». En algunos casos, los instrumentos generan un perfil y un índice.

Un cuestionario debe ser estructurado, es decir, a todos los participantes se les debe formular las mismas preguntas, de la misma forma y en la misma secuencia, con el fin de conseguir la máxima validez de la información. Tienen la ventaja de proporcionar información cuantitativa y estandarizable de la percepción de salud por parte del paciente.

3.3.1.1. Tipos de cuestionarios de CVRS

Existen diferentes criterios a la hora de clasificar los instrumentos de medida de la CVRS.

- **Instrumentos genéricos y específicos**

La clasificación más aceptada es la propuesta por Guyatt, [108] que distingue dos tipos de cuestionarios, instrumentos genéricos e instrumentos específicos para una enfermedad.

Los instrumentos genéricos[109] se utilizan en la población general, permiten comparar distintas poblaciones independientemente del estado de salud ó enfermedad, los contenidos que analizan son comunes e intentan dar una aproximación general del estado de salud. Incluyen dimensiones como el funcionamiento físico, social, bienestar emocional, vida familiar, escolar, etc. Su principal propósito es lograr una aproximación descriptiva de la población general. Son especialmente útiles para comparar pacientes con diferentes enfermedades crónicas entre si, y para comparar individuos con enfermedades respecto a la población general; también se utilizan en pacientes con mas de una enfermedad. Además de los resultados obtenidos en cada población particular, permiten la integración de los hallazgos entre distintas enfermedades o intervenciones. Debido a su amplitud, las mediciones generales pueden no ser sensibles a pequeños cambios en el estado o funcionalidad del niño y podrían pasar por alto factores clínicos relevantes de la vida de los niños, relacionados con aspectos específicos de la enfermedad, por lo que no analizan los impactos específicos de la enfermedad ni de sus tratamientos en la calidad de vida.[110]

Los instrumentos específicos[111] en cambio, se han diseñado para ser aplicados en patologías específicas o grupos poblacionales concretos. Se orientan hacia un tipo de enfermedad e intentan captar con mayor precisión los cambios clínicos y el impacto de los tratamientos y de las intervenciones sanitarias. Son útiles sobre todo para evaluar cambios físicos y efectos del tratamiento a través del tiempo. Su mayor capacidad de discriminación y predicción, les hace especialmente útiles para la evaluación de intervenciones terapéuticas en poblaciones particulares, pero no permiten la comparación de CVRS entre pacientes con distintas enfermedades o con más de una enfermedad.

Para valorar de forma mas precisa la CV de un grupo de pacientes con una determinada enfermedad lo ideal sería utilizar un cuestionario genérico que recoja aspectos de la vida cotidiana y un cuestionario específico de enfermedad. La utilización de ambos permitirá la comparación entre poblaciones y la identificación de áreas de problemas para diferentes grupos de pacientes.[110,112,113]

En la tabla 1. se muestran las ventajas e inconvenientes de uno y otro tipo de cuestionarios.

Tabla 1. Ventajas e inconvenientes de los cuestionarios: genericos y específicos.

	Cuestionario Genérico	**Cuestionario específico**
Ventajas	Aplicables a un amplio rango de patologías, tratamientos, subgrupos culturales y demográficos.	Diseñados específicamente para un trastorno, condición o población.
	Permite comparar distintas enfermedades, poblaciones.	Sensibilidad a los cambios clínicamente relevantes.
	Proceso de desarrollo más riguroso.	
Inconvenientes	Imprecisos, perdida de aspectos relevantes para una patología concreta.	El desarrollo del instrumento requiere una gran cantidad de tiempo y trabajo.
	Baja sensibilidad a los cambios clínicamente relevantes.	No permiten comparaciones entre distintos grupos.

Otras 2 clasificaciones de los cuestionarios los diferencia entre:

- **Instrumentos autoaplicados/heteroaplicados:**

Los cuestionarios autoaplicados pueden ser cumplimentados por el propio paciente o la familia a través de internet. Requieren recursos mínimos, aunque tienen la desventaja de que las tasas de respuesta son menores y con frecuencia se dejan ítems sin contestar.

Los cuestionarios heteroaplicados precisan de un entrevistador más o menos entrenado o que tenga conocimientos sobre el tema, aunque no siempre es necesario. Una modalidad de entrevista heteroaplicada es la realizada telefónicamente o la que se realiza concretando una entrevista entre el entrevistador y la persona que

queremos que conteste la encuesta. Este tipo de cuestionarios maximiza la tasa de respuestas y minimizan los errores, pero un inconveniente que pueden presentar es que los entrevistadores pueden influir en la respuesta del entrevistado.

- **Instrumentos top-down vs bottom-up**

La mayoría de los cuestionarios se diseñan como un **instrumento top-down,** es decir, son desarrollados por investigadores y clínicos que han utilizado su propia experiencia como guía para la elaboración del cuestionario. Pero existe un interés creciente, sobre todo cuando se intenta evaluar la CVRS de los niños, en el desarrollo de instrumentos de CVRS elaborados del tipo **bottom-up**, que se basan en la propia experiencia de los pacientes y en conocer mejor su punto de vista.

3.3.1.2. Criterios para seleccionar un cuestionario de CVRS

Hay una serie de criterios establecidos que deben seguirse a la hora de seleccionar instrumentos de CVRS.[108,114] Para la elección de un instrumento genérico o específico, se tendrán en cuenta las características de la población de estudio y la finalidad de la información. Se debe tener en cuenta en qué medida se adapta dicho cuestionario al interés o al propósito de la investigación y hasta qué punto las distintas dimensiones pueden ser consideradas importantes en el contexto en que se pretende aplicar.

El primer paso consiste en buscar, entre los cuestionarios publicados, si alguno se adapta a los objetivos del estudio que se quiere realizar, es decir, que sea un cuestionario disponible y aplicable a nuestra población de estudio, ya que por consenso internacional se prefiere utilizar cuestionarios disponibles a tener que crearlos de novo, que es un proceso mucho mas complejo.[115,116] La utilización de instrumentos disponibles tiene la ventaja adicional de que permite la comparación de resultados entre distintas culturas o poblaciones.

Si no existe ningún cuestionario que se adapte a las características del estudio que se pretende realizar, se puede elaborar un cuestionario de novo. El proceso de creación de los cuestionarios para evaluar CVRS se basa en la revisión de la literatura existente sobre el tema, en la consulta a expertos y en grupos de

discusión con miembros de la población diana (niños/as, adolescentes, madres/ padres, etc.). Éstos últimos aportarán las bases fundamentales sobre las que se creará el cuestionario.[84,87,117]

3.3.1.3. Características psicométricas. Validación de un cuestionario.

Una vez desarrolladas las preguntas y construido el cuestionario se debe comprobar que las puntuaciones que se obtienen para cada dimensión cumplen con las llamadas "propiedades psicométricas" del instrumento (fiabilidad, validez y sensibilidad al cambio). A este último proceso en su conjunto se le llama "*validación".*

A continuación se describen los principales conceptos que se comentarán con más detalle en la metodología.

La fiabilidad[118] es el grado en que un instrumento proporciona la misma puntuación cada vez que se administra siempre que las condiciones de medición no varíen. El instrumento está midiendo algo de una manera reproducible y consistente. Sus valores se encuentran entre 0 y 1, siendo 1 la fiabilidad perfecta.

Hay varios tipos:

La consistencia interna es la mas utilizada para evaluar la fiabilidad de un cuestionario, es el grado de concordancia entre dos variables que miden el mismo fenómeno dentro de un mismo instrumento. Presenta la gran ventaja de que solo es necesario administrarla una vez. El método ***alfa de Cronbach*** permite estimar la fiabilidad de un instrumento de medida a través de un conjunto de ítems que se espera que midan el mismo constructo o dimensión teórica,[119] mide la homogeinidad de los ítems dentro de una escala.

Los valores del alfa de Cronbach, se encuentran entre 0 y 1, cuanto más cerca se encuentre el valor del alfa a 1 mayor es la consistencia interna de los ítems analizados. Se considera una consistencia interna aceptable si este valor es superior a 0,7.

La reproducibilidad es la medida de la reproducción de los resultados cuando un cuestionario se aplica en más de una ocasión a la misma persona. Son el test-retest, fiabilidad inter-observadores y la fiabilidad intra-observador.[120]

Para medir al fiabilidad se utilizan el coeficiente de correlación de Pearson y el coeficiente de correlación intraclase para variables cuantitativas y el coeficiente Kappa de Cohen para variables cualitativas dicotómicas u ordinales. Se considera un nivel aceptable de fiabilidad a escala grupal cuando los coeficientes son superiores a 0,70 y 0,60 para la consistencia interna y el test-retest, respectivamente.
Todas estas medidas se han utilizado en nuestro estudio y se comentarán posteriormente en metodología.

Una vez validado el cuestionario, hay que tener en cuenta el contexto en el cual se aplicará y mantener la forma de administración y el algoritmo de puntuación recomendado por quienes han desarrollado el cuestionario, ya que cualquier modificación podría afectar las propiedades mencionadas anteriormente y, por tanto, podría llevar a interpretaciones erróneas de los resultados obtenidos.

3.3.1.4. Adaptación transcultural de un cuestionario.

La mayoría de los cuestionarios se han desarrollado en los países anglosajones. La utilización de un cuestionario que ya ha sido validado en otro país permite ahorrar tiempo y el consiguiente coste económico, además de aprovechar la experiencia previa en su utilización, permitiendo realizar comparaciones internacionales.[115,116] Para que este cuestionario pueda utilizarse en una población diferente a la original, su contenido debe ser adaptado a la cultura del país o región donde se pretende aplicar.

El proceso de adaptación requiere una metodología sistemática para lograr versiones del instrumento que sean equivalentes y comparables a la original. La descripción de cómo se lleva a cabo se describirá posteriormente en metodología.

Para evitar los problemas de la equivalencia transcultural varios autores, entre los que destaca el grupo de CV de la OMS,[121] han recomendado desarrollar simultáneamente los cuestionarios en varios países.[122]Esta alternativa permite

hacer comparaciones internacionales y salvar algunas de las limitaciones que surgen de la adaptación transcultural; permite controlar con más garantías la equivalencia y la adecuación de los contenidos a las poblaciones a partir de las cuales se construye, y facilita las comparaciones internacionales.

Esta metodología ha sido aplicada solo en 2 cuestionarios, WHOQOL y mas recientemente el cuestionario Kidscreen, [117,123,124] que es el cuestionario genérico seleccionado para realizar nuestro estudio.

3.3.2.- CUESTIONARIOS DE CVRS EN LA INFANCIA Y ADOLESCENCIA

El desarrollo de cuestionarios dirigidos a la infancia y adolescencia es reciente y está adquiriendo gran importancia en los últimos tiempos, tanto para su uso en la práctica clínica como en salud pública. Tradicionalmente la CV en los niños se evaluaba utilizando la información a través de sus cuidadores, lo que tenía el inconveniente de que frecuentemente era escasa la concordancia entre la visión del informante y la del paciente.

La medida de la CVRS en este grupo de edad tiene particularidades específicas, diferentes a los cuestionarios de adultos, siendo más necesaria en este caso la evaluación de sus propiedades psicométricas.

Los cuestionarios de CV en pediatría deben de tener en cuenta los cambios en el desarrollo físico, emocional y social que suceden en esta etapa de la vida, así como la capacidad del niño para entender los conceptos que se le preguntan. En algunas circunstancias esto no es posible porque el niño está demasiado enfermo o es demasiado pequeño, siendo necesario recurrir a sus cuidadores más próximos para preguntarles sobre su estado.[110,125]

Se deben contemplar las distintas etapas del desarrollo tanto en lo referido a la comprensión, memoria y tiempo de atención, como a la interpretación de su subjetividad en relación a los deseos, intereses, motivaciones y preferencias.

En los instrumentos para niños se mantienen las dimensiones básicas que se consideran en los instrumentos para adultos, física, psicológica y social, pero

tienen distinta importancia y los ítems que los constituyen cambian, agregándose otros como la habilidad de realizar actividades propias de su edad, como el juego, actividades cotidianas, autocuidado y autonomía, entre otros.

En este tipo de cuestionario las dimensiones relacionadas con el *aspecto social*, recogen la forma en que el sujeto interactúa con el medio: colegio, amigos (relaciones con los pares, rechazo por los pares), familia (comunicación familiar). Por otro lado, analizan cómo repercute el estado de salud y enfermedad en el contexto en que se desarrolla el individuo: apoyo social, relaciones con los padres, cohesión familiar y las actividades familiares. En cuanto a los *aspectos psicológicos*, los cuestionarios recogen información sobre los sentimientos y las emociones positivas/negativas; la depresión, el sufrimiento, la ansiedad y el estado de ánimo; la percepción de sí mismo, la autoestima y la apariencia física; la satisfacción con la vida; las adquisiciones cognitivas (habilidad para concentrarse, aprender y utilizar la memoria) y por último, las conductas en general o de riesgos en especial. Con respecto *al aspecto físico*, se evalúa la capacidad para realizar las actividades físicas diarias; desplazamiento, destreza, deambulación y el cuidado personal; los síntomas, como el dolor y el malestar; los sentimientos relacionados con la percepción subjetiva de la salud física; la energía y la vitalidad; así como la percepción general de la salud. [123,126]

A la hora de elaborar un cuestionario para este grupo de edad se tiene mas en cuenta el formato de los cuestionarios, de forma que sean simples, con instrucciones comprensibles, cortos, con menos opciones de respuesta a menor edad, atractivos a la vista y con ayuda de dibujos, principalmente en los instrumentos para niños pequeños. Se suelen utilizar escalas analógicas visuales que facilitan la contestación sobre todo en niños pequeños, donde se representan por ejemplo en forma de caritas 5 posibles opciones de respuestas, muy bien, bien, normal, regular o mal.[127]

Los cuestionarios elaborados para adultos con una patología no pueden utilizarse para niños con la misma patología, sino que deben utilizarse cuestionarios adaptados a la edad del niño, ya que las habilidades para leer y comprender las preguntas, utilizar escalas, definir un periodo de tiempo y recordar situaciones o hechos determinados son distintas según la edad.

La percepción que el niño o adolescente tienen de su CV puede ser distinta a la de sus padres o cuidadores, como muestran distintos estudios que han evaluado la percepción de unos y otros simultáneamente.[87,128] Siempre que se pueda es preferible obtener la información de los niños o de niños y padres simultáneamente.

Las versiones de cuestionarios dirigidas a informantes indirectos (padres, cuidadores o pediatras) son una fuente complementaria y alternativa de información al cuestionario que debe cumplimentar el niño. Las discrepancias entre niños y padres son menores cuando se trata del funcionamiento físico y el comportamiento (aspectos "externos" u "observables") y mayores cuando se trata de los síntomas o del aspecto emocional (aspectos "internos").[129,130]

Además, las respuestas de niños/as y los padres son distintas dependiendo del estado de salud: los padres de chicos sanos tienden a sobreestimar la CV mientras que los de niños/as enfermos subestiman la CV en comparación con la respuesta que dan los niños. Sawyer y col[131] describieron en su estudio como los profesionales de la salud tienden a escuchar solo la descripción que hacen los padres de los problemas que sus hijos tienen, lo cual supone un riesgo de sobretratar algunas patologías, dada su mayor preocupación.

Roizen y col[125] compararon las puntuaciones de CV proporcionadas por un grupo de niños con enfermedades crónicas, sus padres y el médico que atendía al paciente, encontrando diferencias entre unos y otros. Las puntuaciones de los médicos fueron las más bajas, seguidas de las de los padres, mientras que los niños dieron las puntuaciones mas altas. Estos mismos autores y otros como Wallander y col[132] observaron que los padres, médicos y niños discrepaban en la evaluación del impacto del tratamiento sobre la CV del menor.

Por todo lo referido se deduce, que es importante conocer la percepción que tienen de la CVRS de los niños enfermos proporcionada por el propio niño, sus padres o cuidadores y los médicos ya que todos ellos aportan puntos de vista diferentes que deben tenerse en cuenta.

La Agencia de Evaluación de Tecnología e Investigación Médicas [133] llevó a cabo en 2006 una revisión sistemática sobre los instrumentos de CVRS elaborados en la edad pediátrica. A nivel internacional se identificaron 28 instrumentos genéricos, elaborados a través del modelo psicométrico. Según el país de orígen, fueron creados en: Estados Unidos (8), Reino Unido (5), Holanda (4), Francia (4), Canadá (2), Finlandia (2), Alemania (1) y Suecia (1).

El rango de edades, para la versión autoadministrada de niños/as y adolescentes de los distintos instrumentos, se encuentra entre los 4 y 25 años. En la versión de padres, pediatras y cuidadores exclusivamente, desde el nacimiento hasta los 16 años. Los cuestionarios están dirigidos a niños/as y/o adolescentes (12), niños/as y/o adolescentes y padres (12), disminuyendo notablemente el número de instrumentos destinados exclusivamente a padres y/o pediatras y/o cuidador. Algunos presentan un módulo adicional sobre enfermedades. Sólo en cinco instrumentos se incluyen figuras ilustrativas con el propósito de estimular una mejor interpretación, ya sea representando lo que se está preguntando o con figuras que acompañan a las distintas categorías de respuesta y que indican distintos estados de ánimo. En cuanto a las propiedades psicométricas de estos cuestionarios 23 de 35 versiones genéricas incluidas en el análisis presentaron una aceptable fiabilidad.

Se identificaron 47 instrumentos específicos que, según su país de origen, se desarrollaron en Estados Unidos de América (18), Canadá (9), Reino Unido (7), España (3), Australia (2), Holanda (1), Francia (1), Alemania (1), Israel (1), Taiwán (1) y Noruega (1). El 76 % de los cuestionarios se elaboraron en inglés. Predominan las versiones auto - administradas para niños y adolescentes. Sólo en un instrumento incluye figuras ilustrativas con el propósito de mejorar la interpretación. 34/58 instrumentos específicos, incluidas todas sus versiones, presentan aceptables resultados de fiabilidad.

Sólo un instrumento ha sido desarrollado simultáneamente en diversos países, ***el cuestionario Kidscreen***[123]*.* Este cuestionario fue el primer instrumento genérico de CVRS para población infantil y adolescente de 8 a 18 años y se desarrolló simultáneamente en 13 países europeos (Alemania, Austria, España,

Francia, Grecia, Hungría, Irlanda, Holanda, Polonia, Reino Unido, República Checa, Suecia y Suiza) a partir de las opiniones de la propia población diana.

La participación de varios países en su elaboración aseguró la equivalencia transcultural por 3 vías:

1) Elaboración de un marco teórico común de aplicación.
2) Realización simultánea en todos los países de la traducción y armonización internacional .
3) Elaboración de la versión definitiva teniendo en cuenta la diversidad de países, la edad y el sexo para seleccionar los ítems con el mejor rendimiento posible.

Nuestro país participó en la elaboración del cuestionario original. Posteriormente se desarrolló la versión española y fue validado, tras comprobar que sus características psicométricas eran adecuadas.[134,135] Ha sido adaptado posteriormente en otros países, como Argentina,[136] Chile,[137] México,[138] Colombia,[139] Irán, [140]Corea[141] y Japón,[142] entre otros, demostrando que se puede adecuar a varios contextos y asegurándose la equivalencia transcultural. Por todas estas cualidades este instrumento genérico fue seleccionado para realizar nuestro estudio.

En nuestro país, existe en la actualidad una herramienta a través de internet, que se denomina BiblioPRO, [143] que proporciona un acceso ágil a los cuestionarios PRO en español para todos los países del mundo y facilita la selección del cuestionario mas adecuado para el estudio que se quiera realizar. Es una plataforma virtual desde la que los autores de los cuestionarios PRO pueden divulgar los resultados de su investigación. Se desarrolló con el fin de promover la medición de los Resultados Percibidos por los Pacientes (PROs) en la investigación, la práctica clínica y la gestión sanitaria.

Los objetivos de BiblioPRO son:

1) Identificar todos los cuestionarios de resultados percibidos por los pacientes (PRO) y calidad de vida relacionada con la salud (CVRS) en español.

2) Recopilar dichos cuestionarios en una biblioteca virtual de acceso libre, de forma que permita a quien quiera utilizarlos la selección del cuestionario más adecuado para el tipo de estudio que se quiera realizar.

3) Facilitar el acceso legal a estos cuestionarios, para que puedan ser valorados los resultados de la investigación realizada en nuestro país.

4) Convertirse en la referencia científica internacional respecto a los cuestionarios disponibles en español.

En tabla 2 se muestran todos los cuestionarios disponibles hasta la fecha, habiéndose identificado hasta la fecha mas de 500 cuestionarios en español.

Tabla 2. Cuestionarios de CVRS en niños y adolescentes utilizados en España

Autor/adaptació	Siglas	Título	Adaptado al español	Cuestionario original
Mishoe S	AMA	Acerca de mi asma	(en proceso de adaptación??)	About my asthma Misoe. J Asthma 1998. USA.
Bobes J	AUQUEI	Cuestionario AUQUEI	Quality of Life Research 1998;7:597	Autoquestionnaire Qualité de vie-Enfant-Imagé. Francia 1997
Badia X	CAQS	Cuestionario de asma infantil	An Esp Pediatr. 2001 Mar;54: 21.	Australia 1993
Desconocido	CDLQI	Indice de CV en Dermatología Para niños	No publicado	UK. 1995
Garcia Garcia JJ	CHAQ	Cuestionario para evaluar la Salud infantil en niños con artritis cronica juvenil.	Clin Exp Rheumato l 2000;18:95-102. (Barcelona)	Childhood Health Assessment Questionnaire EEUU (1994)
Rajmil L	CHIP-AE	Perfil de salud infantil CHIP-AE (adolescentes)	Med Care 2003 41:1153-63	Child Health and Illness Profile : Adolescent Edition (CHIP-AE) EEUU 1996
Rajmil L	-CHIP-CE/CRF (niños 6-11 años) - 2 cuestionarios padres: CHIP-CE/PRF 44 / 75	Perfil de salud infantil CHIP-AE 7 (para niños de 6-11 años)	An Pediatr Bar 2004;60:522-9	Child Health and Illness Profile : Child Edition / Child Report Form (CHIP-CE/CRF) 2004
De Inocencio J	CHQ	Cuestionario de salud infantil	Clin Exp Rheumatol 2001; 19(supl 23): s141-5	Child Health Questionnaire. EEUU 1996
Rajmil L	KIDSCREEN:	Calidad de Vida Relacionada con la Salud en Niños y Adolescentes	Gac Sanit 2005 19:93-102.	Alemania 2001
Rajmil L	KINDL-R Kid;kiddo, Kiddy, padres (5 cuestionarios)	Cuestionario de CV en Población infantil y adolescente	An Esp Pediatr 2004 ;60:514-	Qual Lif Res 1998 (Alemania)
Desconocido	NEPHIRD	Cuestionario de opinion en cuidadores y pacientes con enfermedades raras	-------	Ann Ig. 2007 ;19:153-60.
Muñoz-Soto E	OCV	Calidad de vida oral	Servicio Canario de Salud; 2000. p. 55-6,136-7.	EEUU 1976
Tauler E	PAQLQ	Cuestionario de Calidad de Vida Niños con Asma	Qual Life Res2001;10:81-91. Barcelona	Pediatric Asthma Quality of Life Questionnaire Canadá 1996
Cella D	Peds-FACIT-F	Versión española del Peds-FACIT-F	Med Care. 1998	Peds-FACIT-F: Pediatric - Functional Assessment of Chronic Illness Therapy-Fatigue. 1993

González Luis	PedsQL(6 cuestionarios) 1..-niños y adolesc con asma 2.- Enf crónicas 3.- 8-18 años 4.-8-18 a 4.-Padres de niños de 8-18 años sanos y con patología cronica	Cuestionario de CV Pediátrica (5-7 años) para niños a adolescentes con asma	An Esp Pediatr 2001; 54:213-21.	Pediatric Quality of Life Inventory EEUU 1999
McKenna SP	(PIQoL-AD)	Parents' Index of Quality of Life in Atopic Dermatitis (PIQoL-AD) 2005	Qual Life Res. 2005 Feb; 14(1):231-41.	Parents' Index of Quality Of Life in Atopic Dermatitis (PIQoL-AD .2005.UK)
Olivares S	Escala de CV POQOLS para Niños con Cáncer	The Pediatric Oncology Quality of Life Scale	Psiquis 1996	Psychological Assess 1994; 6 :321-8 1994
Rajmil L	TAPQOL	An Pediatr 2008;68:420-4.	TNO-AZL Preschool children Quality of Life) Arch Dis Chil 2005;90:351-8.	2005. Rotterdam, Netherlands.
La versión españ fue elaborada po autores originale	VFQ-25	Arch Ophthalmol. 2001 Jul;119(1050-8.	VFQ-25 Visual Functionning Questionnaire 25	USA 2001
Pineda S	WRVAS	Escala Walter Reed de Valoración Visual Scoliosis 2006, 1:18 Barcelona	Walter Reed Visual Assessment Scales.	EEUU Spine 2003
Herranz JL	CAVE	Escala de CV de niños con epilepsia	Rev Neurol 1995;23:1268,	Desarrollado originalmente en España (Santander)
Expósito F	ECVNO	Escala de CV en niños oncológicos	Psiquis 1996; 17: 383-388	Desarrollado originalmente en español

4.- CUESTIONARIOS DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN EL PACIENTE CELÍACO

4.1. ESTUDIOS QUE EVALUAN LA CVRS EN ADULTOS CON EC

4.1.1. ESTUDIOS DE CV EN CELÍACOS ADULTOS UTILIZANDO CUESTIONARIOS GENÉRICOS

Para valorar la calidad de vida del paciente celíaco adulto, se utilizaron inicialmente cuestionarios genéricos como el SF-36 o el EuroQol-5D (EQ-5D).

4.1.1.1. Estudios realizados con el cuestionario SF 36

Este cuestionario consta de 2 scores uno valora las características mentales y psicológicas y el otro el bienestar físico. En la mayoría de estudios en los que se utilizó el cuestionario SF 36 se observó que la CV de estos pacientes se veía afectada por tener la enfermedad y que este efecto disminuía al realizar la DSG. [82,88,144,145]

Nachman y col.[144] relacionaron el incorrecto cumplimiento de la dieta con un deterioro de la CV en estos pacientes. Johnston y col[82] observaron que los pacientes con la forma clásica de presentación tenían significativamente peores puntuaciones medias de CV que los controles en 4 de las 8 subescalas del cuestionario SF 36 (salud general, vitalidad, estado emocional y salud mental), pero tras un año realizando la dieta sin gluten, mejoraban significativamente las puntuaciones medias de salud general y vitalidad. En contraste a estos resultados, Hallert y col[89] observaron que a pesar de una estricta adherencia a la DSG, diez años tras el diagnóstico, la mayoría de los pacientes tenían una CV inferior a la población general.

Tontoni [146] realizó otro estudio que destacamos a pesar de su pequeño tamaño muestral porque su diseño prospectivo hace más relevantes sus resultados.

Se evaluó la CVRS al diagnóstico, al mes, al año y a los dos años de iniciada la DSG, en un grupo de celíacos adultos con distintas formas de presentación de la enfermedad, para lo que utilizaron el cuestionario genérico SF 36, en su versión validada para población italiana.[147] Participaron 43 adultos celíacos (18 con clínica típica, 15 con clínica atípica y 10 con Dermatitis Herpetiforme) y 86 controles sanos pareados por edad y género. Al diagnóstico los pacientes con EC mostraron peores puntuaciones totales respecto a los controles en la mayoría de las dimensiones, siendo peor puntuadas la función física y mental. Sin embargo, tras iniciar la DSG los scores fueron mejorando, al mes se observó una mejoría de puntuaciones en la escala mental pero no en la dimensión de salud física, mientras que al año y a los dos años de DSG las puntuaciones habían mejorado de forma significativa en ambas dimensiones, mental y física, siendo similares a las de los controles sanos. Las mujeres presentaron peores puntuaciones al diagnóstico en la dimensión mental, sin encontrarse diferencias tras inicio de la DSG. Los pacientes con formas clásicas y no clásicas presentaron mejores puntuaciones tras la DSG, y estas fueron en el primer caso, superiores de forma significativa a las de los controles y en el segundo similares a los controles. Los pacientes con Dermatitis Herpetiforme tuvieron puntuaciones similares a los controles al diagnóstico y en el seguimiento. La mejoría de la CVRS de estos pacientes en el seguimiento podría estar en relación, según los autores, con el correcto cumplimiento de la dieta.

Sin embargo, en otros estudios,[83,85,91] los pacientes celíacos presentaban significativamente peores puntuaciones de CV respecto a la población general a pesar de realizar una DSG. Fera y col,[85] Estos últimos autores observaron peores puntuaciones medias de CV en el celíaco, siendo las escalas peor valoradas las de salud general, salud mental y vitalidad del SF 36. La reflexión de estos autores es que a pesar de que la DSG mejore el bienestar físico de los pacientes celíacos, hay otros aspectos de su vida que se pueden ver afectados, como muestra el hecho de que frecuentemente presenten transtornos afectivos como la depresión y ansiedad como mecanismos de adaptación a su enfermedad.

Usai y col[148] observaron que la CV del celíaco se podía ver afectada negativamente por varios factores, como el pobre cumplimiento de la dieta sin gluten, la gravedad de la enfermedad al diagnóstico y la presencia de enfermedades asociadas.

La discrepancia observada entre los distintos estudios sobre el impacto de la DSG en la CV del paciente con EC podría estar en relación con que dichos estudios son retrospectivos y valoran la CV de pacientes con distinto grado de cumplimiento de la DSG, además de que muchos de ellos no tienen grupo control de comparación.

4.1.1.2. Estudio realizado utilizando la versión corta del cuestionario SF (SF 12)

En el año 2002 se llevó a cabo la "Encuesta Nacional de Salud de EC en Canadá" a través de la Asociación Nacional de Celíacos. Se recogieron datos demográficos, clínicos y de diagnóstico (76 ítems) en un cuestionario que posteriormente fue validado.[149] Para evaluar la CVRS se seleccionó el cuestionario genérico SF en su versión corta (SF-12) publicado por Ware[150] y posteriormente aplicado por Riddle, y colaboradores.[151] El estudio se realizó por e-mail, participando 2681 y 168 niños. Se publicaron de forma independiente los resultados del grupo de EC adultos [152,153] a los que se hará referencia a continuación y los de los niños[66] que se comentarán en otro apartado. Las puntuaciones de CVRS de los celíacos adultos fueron muy similares a las obtenidas en población sana de Canadá aplicando el cuestionario SF 36,[154] exceptuando 2 grupos: las mujeres y los pacientes diagnosticados hacía menos de un año. Al preguntarles sobre los factores que podrían contribuir a mejorar su CV, los más destacado fueron la mejor cumplimentación de la dieta mediante el correcto etiquetado de los alimentos y la mayor disponibilidad de productos sin gluten y la adecuada información a los pacientes recién diagnosticados por parte de dietistas y gastroenterólogos.

Green y col [86] realizaron una encuesta en el año 2011, EC adultos pertenecientes a asociaciones de celíacos de USA. La encuesta se realizó a través de Internet y consistía en preguntas genéricas sobre la percepción de la CV antes y después del diagnóstico de la EC. Se incluyeron 1612 pacientes, de ellos 63% afirmaron que tenían una percepción de CV mala o regular antes del diagnóstico y 77% presentaron mejoría en la CV una vez tratados.

4.1.1.3. Estudios realizados en España con celíacos adultos utilizando cuestionarios genéricos

Destacamos estos estudios porque es de los pocos que se han realizado en nuestro país. Casellas y col[155] realizaron un estudio en Cataluña que incluyó 54 pacientes con tiempo medio de DSG de 60 meses y 9 pacientes recién diagnosticados que todavía no habían iniciado la DSG. Utilizaron dos cuestionarios genéricos: el EuroQol-5D (EQ) aplicado en población sana, adaptado y validado en español[156] y The Gastrointestinal Quality of Life Index (GIQLI) diseñado para valorar la CV en pacientes con enfermedades gastrointestinales (G-I), también adaptado y validado para su uso en España.[157]Las puntuaciones obtenidas con ambos cuestionarios fueron significativamente mejores en los pacientes que realizaban DSG respecto a los que no habían iniciado la dieta aún. Se compararon las puntuaciones del EuroQol-5D (EQ) en el grupo de celíacos con las obtenidas en la población sana de referencia, siendo muy similares. Posteriormente estos autores realizaron otro estudio prospectivo[158] en el que participaron pacientes celíacos adultos de siete hospitales de diferentes ciudades para valorar los factores que influían en la CVRS utilizando los dos cuestionarios antes referidos. Se incluyeron 354 pacientes, 163 seguían DSG y 177 pacientes recién diagnosticados que aún no la habían iniciado. Con el cuestionario GIQLI, la CVRS de estos últimos fue significativamente peor, en el score global y en las dimensiones individuales del cuestionario, que en los pacientes con DSG. Las dimensiones peor puntuadas fueron los de disfunción física, emocional y la de síntomas G-I, esto sugiere que las dimensiones mas afectadas en los pacientes recién diagnosticados son las relativos a síntomas físicos y emociones. En los pacientes que realizaban DSG las dimensiones mejor puntuadas fueron las del tratamiento y las peores los de la disfunción emocional, lo cual sugiere que aunque la CV de estos pacientes mejore con la DSG, su CV se ve afectada, principalmente en la esfera emocional. Se obtuvieron resultados similares con el EuroQol-5D. Los pacientes de recién diagnóstico mostraron peores puntuaciones en todas las dimensiones del cuestionario EQ mientras que las puntuaciones medias de CV de los celíacos que seguían DSG fueron similares a los de la población sana de referencia, lo que confirmaría que la DSG mejora la percepción de salud de los EC. Los factores que se relacionaron con una peor percepción de la CVRS en ambos cuestionarios

fueron la presencia de síntomas, la no realización de DSG y el género femenino. Con el cuestionario EQ, además se obtuvieron puntuaciones significativamente peores en los pacientes con enfermedades asociadas. Sin embargo, no se encontraron diferencias en la percepción de CVRS en función del grado de cumplimiento de la dieta.

4.1.2. ESTUDIOS DE CV EN CELÍACOS ADULTOS UTILIZANDO CUESTIONARIOS ESPECÍFICOS

Como ya se ha referido, los cuestionarios genéricos no evalúan aspectos específicos de enfermedad y en el caso de la EC pueden no reflejar las preocupaciones de los pacientes que viven con la enfermedad y el hecho de tener que realizar una dieta altamente restrictiva para toda la vida. Además, estos cuestionarios no detectan los cambios en el tiempo derivados de una intervención terapeútica, como la retirada del gluten de la dieta, por lo que, si bien inicialmente se utilizaron cuestionarios genéricos, se han ido elaborando con el tiempo cuestionarios específicos de EC, en un intento de valorar de forma objetiva estos aspectos de la enfermedad.

En la tabla 3. se muestran los cuestionarios específicos de EC elaborados para pacientes adultos y niños.

Tabla 3. Cuestionarios específicos de CVRS para pacientes celíacos

CUESTIONARIOS ESPECÍFICOS DE EC EN ADULTOS

- **The Celiac Disease Questionnaire (CDQ) . Hauser. 2007. Alemania.**

Adaptado transculturalmente en :

  - **Italia. Marchese. 2013**
  - **Francia. Pouchot. 2014**

- **The coeliac disease quality of life Survey (CD-QOL) Dorn. 2010 .USA.**

Adaptado transculturalmente en:

  - **España: Dr Casellas.2013**
  - **Italia: Zingone. 2013**

CUESTIONARIOS ESPECÍFICOS DE EC PARA NIÑOS

- **CDDUX. Holanda. Dr Van Doorn. 2008**

Adaptado transculturalmente en:

  - **Argentina. Picó 2012**

- **Celiac Disease Quality of Life Instrument for North American Children. Dr Jordan. 2013**

Cuestionarios específicos de EC en adultos

Hasta la fecha solo se han elaborado 2 cuestionarios específicos de EC para celíacos adultos.

Hallert y col[89] fueron los primeros autores que elaboraron un cuestionario de 9 ítems sobre el impacto de la EC basado en años de experiencia con pacientes adultos. Las principales limitaciones de este cuestionario son que no se utilizó un panel de pacientes y expertos ni se realizó una revisión bibliográfica para generar los ítems del cuestionario, por lo que es cuestionable si los 9 ítems representan por completo el espectro de restricciones en la CVRS de los pacientes con EC, a esto se añade que hay algunos errores metodológicos, ya que las propiedades psicométricas del cuestionario solo fueron parcialmente evaluadas, como han señalado otros autores.[159]

4.1.2.1. The Celiac Disease Questionnaire (CDQ)

Haüser y col[159] elaboraron y validaron en Alemania un cuestionario con preguntas específicas de EC The Celiac Disease Questionnaire (CDQ), a partir de las opiniones de pacientes de la Asociación de Celíacos (10 pacientes) y de médicos expertos en EC (4) y de una revisión de la literatura. Se seleccionaron potenciales ítems que afectaran la CVRS del paciente con EC, elaborándose la primera versión del cuestionario, que fue reducida y re-testada por otros 10 celíacos y 4 médicos expertos, construyéndose la versión preliminar del cuestionario Celiac Disease Questionnaire (CDQ). El cuestionario consta de cuatro dimensiones, "emocional", "social", "preocupaciones en relacion con la enfermedad "y "síntomas gastrointestinales". Hay que destacar que este cuestionario contiene ítems sobre el impacto financiero de la DSG y el impacto emocional que supone el diagnóstico de la enfermedad y el escaso conocimiento de la misma por parte de los profesionales sanitarios, estos ítems fueron añadidos por sugerencia de los pacientes que participaron en el estudio y en base a la revisión de la literatura. Sin embargo, los items " problemas en los viajes", "problemas en las vacaciones", "problemas en la compra de productos sin gluten" y "problemas en el etiquetado de los productos sin gluten", que han sido citados en otros estudios como problemas que impactan la CVRS de estos pacientes, [59,149] fueron excluidos porque no reunían los criterios predefinidos para su inclusión además, estos criterios presentaban un efecto techo superior al 21%, lo cual indica que una parte importante de los pacientes no experimentaban problemas en relación a estos aspectos. Esto puede ser debido, según los autores, a que los participantes del estudio eran miembros de una asociación de celíacos muy bien organizada, que proporciona a sus socios información suficiente sobre los establecimientos en los que pueden adquirir productos sin gluten, cuando salen fuera o en los viajes. La exclusión de estos ítems puede suponer como sus propios autores indican una limitación en la validez del cuestionario CDQ para su aplicación en otros grupos étnicos que tengan dificultades en estos aspectos.

Una vez elaborado el cuestionario y con el fín de validarlo, se envío dicho cuestionario a una muestra de mil socios de la Asociación de Celíacos de Alemania, mayores de 18 años, y seleccionados al azar. Junto con el cuestionario se envió

un cuestionario de datos demográficos, el cuestionario genérico SF 36, una escala de depresión y ansiedad, y otro cuestionario de síntomas. La encuesta fue contestada por 522 socios y cien de ellos lo volvieron a contestar en una segunda ocasión para comprobar la fiabilidad test - retest del cuestionario. El cuestionario mostró tener unas adecuadas propiedades psicométricas y recientemente ha sido adaptado transculturalmente y validado para su utilización en Italia por Marchese y col[160] y en Francia por Pouchot y col.[91]

Estos últimos autores, también administraron simultáneamente el cuestionario genérico SF 36 y una escala de depresión y ansiedad. Y repitieron el cuestionario en dos ocasiones mas, a la semana y los seis meses de cumplimentarlo por primera vez, mostrando capacidad para diferenciar las puntuaciones si el paciente refería un cambio en su estado de salud, cuando se repetía en el tiempo.

Las puntuaciones medias del cuestionario CDQ fueron entre 61 y 70 en el total y las cuatro dimensiones, en una escala de 1 a 100. Sin embargo al rellenar el cuestionario genérico se observaron peores puntuaciones de CVRS en los celíacos franceses que en la población general , por lo que los autores concluyen que la EC tiene un impacto negativo sobre su CV, como también señaló Haüser.[159]

4.1.2.2. The coeliac disease quality of life Survey (CD-QOL)

Posteriormente Dorn y col, [161] elaboraron y validaron otro cuestionario específico de EC en USA, The coeliac disease quality of life Survey (CD-QOL). Al igual que los anteriores autores, el cuestionario se elaboró a partir de las opiniones de los pacientes, y de expertos. Para la elaboración de los ítems del cuestionario, se seleccionaron grupos de pacientes mayores de 18 años a través de una asociación de celíacos de Nueva York. En los grupos de trabajo se plantearon preguntas sobre el impacto de la enfermedad en sus necesidades básicas en relación a la naturaleza de la EC y el impacto que esto producía en ellos. A partir de sus opiniones se elaboraron los ítems del cuestionario, que fueron revisados por expertos y por otros pacientes, eliminando los ítems redundantes, tras lo que se creó un cuestionario piloto. Esta primera versión del cuestionario fue administrada a

otro grupo de pacientes para detectar los posibles problemas que pudieran generar los ítems.

El cuestionario final consta de 20 ítems agrupados en 4 dimensiones (limitaciones, disforia, problemas relacionados con la salud, y tratamiento inadecuado) y una puntuación total. Las puntuaciones se transformaron en una escala de Likert de 5 dimensiones. Las puntuaciones se expresaron en una escala de 0-100.

El último paso fue la validación del cuestionario con el fín de evaluar sus propiedades psicométricas.Para llevar a cabo esta parte se incluyeron pacientes adultos de una asociación de celíacos y pacientes que acudían a consulta en un centro terciario. Los pacientes que participaron debían ademas contestar otros formularios, 1)una pregunta simple con 5 opciones de respuesta en la que se preguntaba por la salud autopercibida, 2) un cuestionario con 18 ítems para evaluar el estrés psicológico, 3) un cuestionario genérico, Sickness Impact Profile (SIP), donde se les preguntaba por aspectos del día a día en relación con su funcionalidad , 4) una escala de síntomas G-I y 5) una escala anóloga visual para evaluar el grado de dolor abdominal diario.

Contestaron la encuesta 387 pacientes celíacos adultos, cuyo perfil era mujeres de raza caucásica, edad media, y más de 9 años de evolución de la EC y DSG.

El cuestionario mostró unas adecuadas propiedades psicométricas para las 4 escalas y la puntuación total. Su correlación con la valoración de la salud autopercibida fue moderada - buena (0,35-0,65) mostrando una buena validez convergente. Su capacidad para discriminar entre grupos fue buena, ya que, aquellos con peor valoración de la salud autopercibida, con mas limitaciones físicas en el día a día, con mas estrés psicosocial y con puntuaciones mas altas en la escala de dolor abdominal VAS mostraron peores puntuaciones totales y en las 4 dimensiones con el cuestionario CD-QOL.

Según los autores del CD-QOL, la ventaja que aporta su cuestionario respecto al cuestionario CDQ es que aquel se centraba principalmente en los

síntomas físicos y psicológicos y en las limitaciones que supone la enfermedad en la vida diaria, mientras que el CD- QOL es un cuestionario basado en las necesidades, que capta mejor las percepciones del individuo y evalua los aspectos psicosociales y como afecta la enfermeda su capacidad de socialización. Pero sin embargo no contiene ítems relacionados con el impacto de los síntomas físicos en la CVRS de los pacientes, porque no fue notificado como un problema en los pacientes que participaron en la elaboración del cuestionario. Otra ventaja añadida es que no solo participaron pacientes de la asociación de celíacos, con lo que la representatividad del colectivo celíaco es mayor.

El rango de puntuaciones total y en las 4 dimensiones fue entre 25 y 69, con la mayoría de las puntuaciones por debajo de 50 y la dimensión peor valorada fue la de salud autopercibida. Por lo que según refieren estos autores, este cuestionario mostró, en el grupo de pacientes americanos que lo cumplimentó, que la CVRS puede verse afectada por las dificultades de tener que realizar una dieta restrictiva toda la vida, que en USA resulta tan costosa desde el punto de vista económico y tan difícil de realizar.

El cuestionario CD-QOL ha sido recientemente adaptado al español en nuestro medio, por el Dr Casellas y col.[162] Estos últimos autores realizaron el estudio de validación con la participación de 7 centros españoles de distintas Comunidades Autónomas.

Además de este cuestionario, se administraron dos cuestionarios genéricos el EuroQol y la Daily Fatigue Impact Scale (D-FIS) para realizar la comparación de puntuaciones entre cuestionarios. Contestaron el cuestionario 298 pacientes de los cuales, 201 eran celíacos previamente diagnosticados y con DSG de larga duración y 97 con EC recien diagnosticada, previo al inicio de la DSG. Las puntuaciones obtenidas por este grupo de celiacos adultos españoles fueron superiores a 50 puntos en los dos grupos de estudio, tanto en el score total como en las 4 subescalas, por lo que no se puede considerar que su CV se vea muy afectada en estos pacientes. La dimensión peor puntuada es la de tratamiento inadecuado.

El cuestionario mostró una adecuada validez convergente, ya que la correlación del cuestionario específico con los dos genéricos fue de 0,3-0,4, lo cual sugiere que a peores puntuaciones de CVRS con el cuestionario genérico y mayor percepción de fatiga, las puntuaciones del cuestionario CD-QOL tambien son peores.

Para evaluar la capacidad discriminativa del cuestionario, se compararon las puntuaciones de los dos grupos con los dos cuestionarios genéricos y con el CD-QOL. Las puntuaciones de los pacientes que seguían una DSG eran significativamente superiores a las de los que no habían iniciado la DSG cuando cumplimentaban los dos cuestionarios genéricos, mientras que al rellenar el cuestionario específico CD-QOL no se encontraron diferencias entre los dos grupos en la puntuación total, y por dimensiones solo se encontraron en las dimensiones tratamiento inadecuado y la de disforia, observándose las peores puntuaciones en los pacientes que no habían iniciado la DSG aún. Las escasas diferencias observadas con el cuestionario específico pueden deberse según los autores a que muchas preguntas del cuestionario se refieren a aspecto relacionados con la dieta que no pueden ser valorados adecuadamente por un paciente cuando aun no ha comenzado el tratamiento.

El cuestionario mostró buena capacidad para diferenciar a los pacientes según su CVRS autopercibida. Es decir, cuando se les preguntaba , como consideraban que era su CVRS, las máximas puntuaciones del CD-QOL las presentaron los que consideraban su CVRS como buena, siendo peores cuando consideraban que era regular y peores aun si la consideraban mala. Según estos autores, esto muestra que el cuestionario tiene una buena capacidad para detectar la existencia de diferencias en la salud autopercibida, lo que indica una buena capacidad del cuestionario para evaluar la CVRS al diagnóstico y en la monitorización tras el inicio del tratamiento.

Este cuestionario también ha sido validado en Italia, por Zingone y col, [163] que realizaron su estudio con pacientes celíacos adultos de un centro terciario, comprobando que la versión italiana del cuestionario tenía adecuadas propiedades psicométricas.

Rellenaron la encuesta 230 celíacos con una media de nueve años de evolución de la enfermedad. Y las puntuaciones medias que se obtuvieron fueron superiores a 80 en su mayoría, por lo que presentaban una relativamente elevada CV, tenían una buena percepción de su salud general y poco estrés emocional relacionado con la enfermedad. La alta valoración de su CV podría estar en relación, según los autores, con el hecho de que estos pacientes realicen el seguimiento de su enfermedad en un centro terciario de referencia, en el cual la información y educación sanitaria proporcionada sobre las restricciones dietéticas y los problemas de salud relacionados con la enfermedad son excelentes. Estos autores observaron que con dicho cuestionario, no se observaba diferencias de puntuaciones en función de las variables demográficas, ni del tiempo de evolución de la enfermedad, ni de la forma clínica de presentación al diagnóstico.

4.2.- ESTUDIOS QUE EVALÚAN LA CV EN NIÑOS CON EC

4.2.1. ESTUDIOS DE CV EN NIÑOS CELÍACOS UTILIZANDO CUESTIONARIOS GENÉRICOS.

El primer estudio que intentó evaluar la CVRS en niños con EC fue el llevado a cabo en el 2001 por Kolsteren y col. [164]

Estos autores holandeses quisieron investigar la CVRS de niños con EC utilizando dos cuestionarios genéricos de CV que habían sido previamente desarrollados y validados en una amplia muestra de niños sanos holandeses, el TACQOL orientado por problemas para niños y padres y el DUCATQL que valora la influencia de la enfermedad en las actividades diarias y un cuestionario específico el TACQOL-COE-DIET con 6 preguntas que pretendían valorar la influencia de la DSG sobre la vida de estos pacientes.

Se realizó el estudio a través de la Asociación de Celíacos de Holanda, se invitó a participar a 317 niños con edades entre 8 y 16 años, contestando 133 niños. Se compararon las puntuaciones obtenidas en los cuestionarios genéricos con las previamente obtenidas en la población sana de referencia (n= 1183). Las características psicométricas del cuestionario específico fueron adecuadas (alfa de Crombach de 0,8 para niños y padres) y se obtuvieron unas puntuaciones medias

para niños y padres de 70 y 73 respectivamente, en una escala del 1 al 100. Las puntuaciones en los cuestionarios genéricos fueron similares en los EC con DSG que en la población general. Los adolescentes se mostraban levemente menos satisfechos en la escala emocional, fisica y social. Los niños de 8-11 años puntuaban peor las escala social y funcionamiento motor. Las niñas adolescentes tienen mas quejas físicas. Estos hallazgos se han encontrado también en estudios realizados en EC adultos, sugiriendo que el género puede influir en la percepción de CVRS, [165] al igual que la edad, siendo peor valorada en muchos estudios la CV en adolescentes.

Los padres de los pacientes adolescentes con EC notificaron de forma significativa más emociones positivas en sus hijos que en las hijas. Se encontró una correlación razonable entre grupos de niños y padres para cada una de las escalas, pero hubo diferencias en la valoración a nivel individual en el grupo de adolescentes comparado con los padres, al igual a lo encontrado en otros estudios.[99]

Rashid y colaboradores[66] realizaron en 2002 el estudio de Canadá previamente citado, en el que participaron niños menores de 16 años de la Asociación de Celiacos de Canadá. Utilizaron un cuestionario, The Canadian Celiac Health Survey, que consistía en 76 preguntas que incluían datos demográficos, clínicos y de diagnóstico y 12 preguntas específicas sobre el bienestar y el estilo de vida de los niños y sus familias. Se comprobó la fiabilidad y validez del cuestionario completo, aplicándolo en 14 niños. En la mayoría de casos la encuesta fue completada por los padres, aunque se solicitaba que los niños participasen en la cumplimentación. Contestaron la encuesta 168 niños menores de 16 años. Referían cumplir con la DSG de forma estricta el 95%, de ellos el 89% notó una mejoría significativa en su salud al iniciar la dieta. Tras la ingesta accidental de gluten presentaron síntomas el 56% de los niños, principalmente disconfort abdominal 87% y diarrea el 64%. El alto porcentaje de cumplimiento puede estar en relación con la frecuencia de síntomas con las transgresiones. El cumplimiento de la dieta fue mejor si la familia tenía mayor conocimiento de la enfermedad. Al preguntarles por la EC y sobre como les afectaba la DSG, el 48 % referían que la EC limitaba sus actividades en el colegio o en casa de sus amigos, el 50% se sentía diferente a causa de su enfermedad, y 49% se avergonzaba por

tener que llevar alimentos sin gluten a las fiestas. El 77% creía que podría estar sano sin tener que realizar una dieta especial. Un 10-20% creía que la enfermedad había alterado su estilo de vida y su vida social. El 23% se sentía enojado por tener que realizar DSG. El 54% evitaban cenar en restaurantes y si lo hacían 83% llevaban consigo productos sin gluten por temor a no encontrarlos.

En cuanto a la información obtenida consideraban que es excelente la obtenida por la Asociación de Celíacos de Canadá en 63% de casos, por los gastroenterólogos en 44%, por el dietista en el 36% y por el médico de familia en el 11,5%. Cuando se les preguntó que factores creían que podrían contribuir a mejorar su CVRS contestaron: el mejor etiquetado de alimentos 63%, mayor cantidad de productos sin gluten en los supermercados el 49%, poder elegir menús sin gluten en los restaurantes el 49%, diagnóstico previo en la EC 34% y mejor calidad de la información proporcionada por el personal sanitario 7%.

En los últimos años se han publicado varios estudios sobre la CV en niños celíacos utilizando cuestionarios genéricos. A continuación hacemos referencia a alguno de ellos.

Bystrom y col[99] utilizando una versión corta del cuestionario DISABKIDS en 160 familias suecas con niños celíacos, contestando el cuestionario niños y padres. Encontraron peores puntuaciones de CV en los niños que llevaban menor tiempo de evolución de la enfermedad, en los diagnosticados a una edad mayor de 5 años y los que presentaban al diagnóstico la forma no clásica de enfermedad o diagnosticados por cribado. Las puntuaciones proporcionadas por los padres sobre la percepción de la CV de sus hijos fueron inferiores a las proporcionadas por los niños.

Nordyke y col[100] realizaron un estudio con adolescentes suecos de 12 años diagnosticados por cribado, se les invitó a cumplimentar la versión para niños del cuestionario EQ-5D previo a conocer el diagnostico de EC y un año después de haber sido diagnosticados e iniciado la DSG. Cumplimentaron la encuesta 103 adolescentes detectados por cribado y 483 niños de la población general de la misma edad, que también habían participado en el estudio de cribado. Los hallazgos de este estudio sugieren que los adolescentes con EC no diagnosticada

experimentan una CV similar a sus iguales sin EC, tanto previo a conocer el diagnóstico de la enfermedad como un año tras el diagnóstico e inicio de la dieta sin gluten.

Myleus y col[101], realizaron un estudio de cribado de EC multicéntrico en las escuelas de Suecia, en el que participaron 12038 niños de 12 años, siendo diagnosticados de EC 238 niños. Se utilizó el cuestionario Kidscreen, en su versión larga (52 ítems) para comparar la CVRS de 3 grupos de niños: niños sin EC, niños con EC diagnosticada por cribado previo a conocer el diagnóstico de la enfermedad y niños celíacos sintomáticos al diagnóstico que había sido diagnosticados previamente. Al comparar las puntuaciones medias de los 3 grupos, no se encontraron diferencias entre ellos. Parece por tanto que el hecho de tener la EC no incrementa el riesgo de tener peores puntuaciones. Por tanto, en este grupo de estudio no parece que la CV del niño se vea afectada por tener EC, siendo su CV similar a la población general.

Altobelli y col[166] utilizando el cuestionario SF 12 y algunas preguntas específicas que exploraban el binestar y el estilo de vida en niños celíacos de 12-18 años observaron que las puntuaciones medias de CV de los niños celíacos evaluados eran inferiores a las que se había obtenido en población general en la escala mental pero no en la de la salud física. Más de 1/3 de los niños se sentían enfadados la mayoría de veces por tener que seguir la DSG y 20% se sentían diferentes o incomprendidos por tener la enfermedad.

4.2.2. ESTUDIOS QUE EVALÚAN LA CVRS EN NIÑOS CELÍACOS UTILIZANDO CUESTIONARIOS ESPECÍFICOS

Solo existen 2 cuestionarios específicos en niños elaborados con metodología rigurosa y validados. Se describen a continuación:

4.2.2.1. Cuestionario CDDUX. Holanda.2008.

4.2.2.2. Celiac Disease Quality of Life Instrument for North American Children. 2013

CUESTIONARIO CDDUX

El cuestionario CDDUX [87] fue el primer cuestionario específico para niños celíacos, se elaboró en Holanda, en 2008 por el grupo de investigación holandés que años antes había diseñado el cuestionario (TACQOLCD).[164] Estos autores desarrollaron un cuestionario con preguntas específicas de EC para su aplicación en niños entre 8 y 18 años y otro con preguntas específicas para sus padres (CDDUX). Es el primer cuestionario específico para niños celíacos elaborado siguiendo la metodología bottom-up. Es decir, en lugar de diseñarse, a partir de la experiencia de los investigadores (top- down), se diseñó a partir de grupos de discusión de niños celíacos y sus padres, con fin de que los pacientes compartieran sus experiencias acerca de la enfermedad.[167] De esta forma se obtuvo una valiosa información, que posiblemente los investigadores adultos y los padres de los niños no hubieran considerado.[126]

El cuestionario específico previamente elaborado por estos autores TACQOLCD, se había realizado siguiendo la metodología top-down y valoraba la CVRS del niño desde el punto de vista de los investigadores y los médicos que lo atendían sin tener en cuenta la opinión del niño o de sus padres. Además de que dicho cuestionario solo investigaba los síntomas físicos y apenas realizaba una valoración afectiva de los problemas, por lo que solo resultaba útil en las fases iniciales de la enfermedad cuando el paciente está sintomático. Sin embargo, en los pacientes con pocos síntomas o que realizaban la dieta de forma adecuada tenía una escasa capacidad para discriminar los problemas, siendo la puntuación de los scores demasiado positiva. El cuestionario CDDUX se elaboró con la finalidad de poder conocer aquellos aspectos psicológicos de la vida del paciente celíaco que se ven afectados por tener la enfermedad y que no se abordaban con el previamente elaborado por estos autores.

Para realizar este cuestionario se contactó a través de la Asociación de celiacos de Holanda con 52 niños celíacos y sus padres que habían sido diagnosticados un año antes y que fueron seleccionados de forma aleatorizada. Solo aceptaron participar 26 niños que fueron estratificados en 3 categorías de edad denominadas: latencia (8-11 años), adolescencia temprana (12-15 años) y adolescencia tardía (16-18 años). Se entrevistaron por separado niños/ niñas y padres. En cada grupo 2 coordinadores dirigían una entrevista en la que se animaba a todos los participantes a expresar sus percepciones y opiniones sobre vivir con la EC. Las entrevistas fueron grabadas y se seleccionó la información relevante sobre sus experiencias de vivir con la EC, clasificando la información en los siguientes grupos: "situaciones en el hogar", "escuela", "en las relaciones de pares", "salir fuera", "fiestas", "sentirse diferente", "futuro", "deportes", "generalidades", "ventajas", "desventajas" y "un deseo para ser mas feliz". Se recogió principalmente la información sobre los sentimientos y experiencias en torno a vivir con la EC, pero no la relativa a los mecanismos utilizados para hacer frente a la enfermedad.

La información proporcionada por niños y padres fue utilizada para construir un cuestionario piloto con 24 ítems y 2 versiones, una para niños y otra para padres. Se revisó la comprensibilidad del cuestionario, la relevancia de las preguntas elegidas y si las preguntas estaban formuladas de forma apropiada a la edad del niño. El diseño del cuestionario fue similar al del cuestionario genérico utilizado en población holandesa DUX-25.[168,169] En una segunda fase el cuestionario fue validado. La validación se realizó a través de la Asociación de Celíacos de Holanda, que invitó a todos los celíacos con edades entre 8 y 18 años a cumplimentar el cuestionario piloto del CDDUX (24 ítems), además del cuestionario genérico el DUX 25, validado en población holandesa y un cuestionario de datos demográficos y salud en general. El cuestionario se envió a 756 niños (407 de 8-11 años, 275 de 12-15 años y 74 de 16-18 años) y fue cumplimentado por el 70,1% de los dos primeros grupos de edad y por el 63,5% del tercero comprobándose que las propiedades psicométricas del cuestionario eran adecuadas. El análisis psicométrico permitió reducir los 24 ítems a 12, seleccionándose solo aquellos que recogían los sentimientos de los niños y sus padres acerca de la enfermedad, que se mostraron como un instrumento válido. El componente matrix de los 12 ítems hizo una clara distinción en 3 escalas: dieta (6 ítems) comunicación (3 ítems) y

tener la EC (3 ítems). Las puntuaciones medias se expresaron en media y desviación estándar. Para comparar los resultados, las puntuaciones fueron recodificadas en una escala de 1 a 100 y se utilizó una escala de Likert de 5 puntos, donde las puntuaciones de 1-20 se consideraba que correspondían a una CV muy mala, las puntuaciones de 21-40 con una CV mala, de 41-60 neutral, de 61-80 buena y de 81-100 como muy buena. La misma recodificación se utilizó para poder comparar los resultados con el cuestionario genérico. Se compararon las puntuaciones medias obtenidas por los niños y padres con el cuestionario específico presentando los padres puntuaciones significativamente inferiores. Estas diferencias no se evidenciaron al cumplimentar el cuestionario genérico.

Se compararon también las puntuaciones medias obtenidas en los niños celiacos utilizando un cuestionario genérico DUX 25 y el cuestionario específico CDDUX, observándose que con el cuestionario CDDUX los niños con EC valoraban su CVRS como “neutral-mala” (puntuaciones 44 y 39 sobre 100), en niños y padres respectivamente, mientras que con el cuestionario genérico la valoraban como “buena”. Estas diferencias pueden deberse según los autores a la diferente información que se obtiene cuando se utiliza uno u otro tipo de cuestionario, ya que el cuestionario específico pregunta más por los aspectos de la vida que se ven influidos por la enfermedad. Los celíacos pueden valorar estos aspectos de su vida como negativos pero eso no quiere decir que la percepción general que tienen de su CVRS sea negativa.

La información obtenida por estos cuestionarios es diferente en función de la metodología empleada, esto justifica que la información obtenida previamente por estos autores al utilizar el cuestionario TACQOLCD con menos preguntas específicas de enfermedad no obtuviera diferentes puntuaciones en los niños entrevistados respecto a la de la población general.

Se compararon además las puntuaciones del CDDUX con la valoración subjetiva del estado de salud percibido por los padres, observándose que los niños con mejor estado de salud percibida presentaban puntuaciones medias de CVRS más altas.

El cuestionario CDDUX proporciona información sobre el día a día de estos pacientes a través de 3 dimensiones: tener EC, comunicación y dieta. Pero no contiene ítems acerca de los sentimientos de culpa cuando se toman alimentos no permitidos, ya que los niños que participaron en los grupos de discusión para la elaboración del cuestionario, no expresaron tener problemas al respecto cuando fueron entrevistados. Por lo tanto, este cuestionario se centra en las consecuencias de la enfermedad y como se sienten los niños acerca de su enfermedad y por tener que realizar un tratamiento para toda la vida.

Recientemente ha sido adaptado transculturalmente al español en Argentina,[128,170] mostrando la versión argentina del cuestionario CDDUX una buena fiabilidad y validez, y propiedades psicométricas para su aplicación en la población estudiada en niños y padres. Estos mismos autores, en un trabajo recientemente publicado, [171] analizaron su experiencia en la implementación de la versión argentina del cuestionario CDDUX en la práctica clínica y su capacidad para evaluar la sensibilidad al cambio, que hasta entonces no había sido evaluada por otros autores. Realizaron el estudio con pacientes celíacos atendidos en un hospital. Se invitaba a contestar el cuestionario al paciente y a sus padres al acudir a la consulta médica y previo a ser valorados por el gastroenterólogo. El gastroenterólogo recibía las contestaciones obtenidas, como un dato complementario en consulta y a su vez también cumplimentaba el cuestionario, tras haber atendido al paciente. En algunos casos, tras la valoración del paciente se indicaba alguna intervención terapéutica a partir de las contestaciones del CDDUX y lo observado en la consulta (derivación a otros profesionales del equipo interdisciplinario,nutricionista, psicóloga, médica clínica, participación de reuniones grupales con otros pacientescelíacos, etc.) Se anotaban los pacientes en los que se indicaba alguna intervención. Se repitió la encuesta en un tiempo medio de 9 meses (3-21 meses) tras la primera consulta. Se evaluó la sensibilidad al cambio comparando las puntuaciones medias de la primera y 2º consulta. Se aplicó además una escala de percepción del cambio desde la opinión del paciente y su padre, en la que se les preguntaba sobre como percibían su CVRS respecto a la primera vez que contestaban el cuestionario, había 3 respuestas posibles: mejor, igual o peor. También se les preguntó por su experiencia al contestar el cuestionario. En una primera fase 118 niños y padres contestaron el cuestionario, la segunda vez solo 102 lo hicieron. Las puntuaciones medias fueron más elevadas la

segunda ocasión que se completó el cuestionario. Las diferencias entre la primera y segunda vez que se completó el cuestionario, eran congruentes con la percepción del cambio expresada por niños y padres, siendo mayor el acuerdo entre puntuaciones y sensibilidad al cambio entre niños y padres que entre niños y el gastroenterólogo que atendía al paciente. Estas diferencias de percepción comentan los autores que son complementarias, y ya han sido comentadas por otros autores. La experiencia de niños, padres y gastroenterólogos al cumplimentar el cuestionario fue satisfactoria y de utilidad, consideraron que la cumplimentación del cuestionario puede ayudar a expresar aspectos de la CVRS del niño que ni se muestran a nivel clínico ni se hubieran manifestado en la consulta. Conocer estos aspectos de la CVRS del paciente permitirá al gastroenterólogo a establecer medidas para intentar mejorar la CVRS de los pacientes.

Las peculiaridades de este cuestionario, principalmente el ser el primer instrumento específico de CVRS en niños celíacos, y la ausencia de un instrumento de estas características en nuestro país ha motivado nuestro interés en adaptarlo transculturalmente para poder utilizarlo en nuestro medio.

Celiac Disease Quality of Life Instrument for North American Children. CDPQOL

Jordan y colaboradores[84] elaboraron un cuestionario específico para niños con EC en USA, que fue publicado en 2013. Estos autores opinaban que el único cuestionario específico existente hasta la fecha para niños con EC, creado en un país europeo (CDDUX), posiblemente no fuera adecuado para su aplicación en los niños americanos, ya que las características de la población americana son distintas a las de la población europea. En USA la tasa de EC infradiagnosticada es mayor y existen mas problemas y dificultades para realizar una DSG, ya que los productos sin gluten son mas caros, existe mayor dificultad para encontrarlos y no están financiados. Además de que la sensibilización de la sociedad americana con la EC es menor que en Europa, por lo que era necesario crear un instrumento específico para niños con EC en USA. En base a esto estos autores diseñaron un nuevo cuestionario, el Celiac Disease Pediatric Quality of Life Instrument for North American Children (CDPQOL). Se desarrollaron dos cuestionarios, una para niños de 8-12 años y otra para niños de 13-18 años, en la elaboración de cada uno de los

dos cuestionarios participaron 12 niños que cumplían adecuadamente la DSG. Para su validación posterior completaron este cuestionario, junto con uno genérico, el PedsQL, 181 niños. El cuestionario para niños de 8-12 años constaba de 16 preguntas agrupadas en 4 dimensiones :1) Hogar con 2 preguntas, 2) Escuela con 8 preguntas, 3) salir fuera o eventos sociales con 4 preguntas y 4) autoestima con 2 preguntas. El cuestionario para niños de 13-18 años, constaba de 6 dimensiones:1) hogar con dos preguntas, 2) escuela con cinco preguntas, 3) salir fuera con siete preguntas, 4) autoestima con dos preguntas y dos dimensiones mas que no aparecían en el anterior cuestionario, una sobre aspectos específicos de la dieta con 2 preguntas y la otra sobre aspectos relacionados con su futuro con otras 2 preguntas.

Los niños del grupo de menor edad referían problemas principalmente en el entorno escolar, mientras que a los de mayor edad los principales problemas les surgían en los eventos sociales y al salir a comer fuera de casa Los niños de 8-12 años tuvieron una puntuación media de 83.8 y los de 13-18 años de 82.1. Las puntuaciones obtenidas con el cuestionario genérico PesQL fueron buenas.

Según estos autores, estos cuestionarios tienen ciertas ventajas sobre el cuestionario CDDUX como son que el CDDUX solo tiene una versión para niños de 8-18 años mientras que CDPQOL tiene 2 versiones distintas para distintos grupos de edad, justificando la necesidad de tener distintos cuestionarios por edades en que la comprensión de las preguntas del cuestionario puede ser diferente según la edad y la percepción que tienen sobre vivir con la EC y los problemas que les preocupan en relación con la enfermedad también pueden ser distintos en función de la edad. Otra ventaja del CDPQOL según sus autores es que las preguntas del cuestionario CDDUX se centran sobretodo en los problemas relacionados con la dieta, mientras que este nuevo instrumento recoge otros aspectos en relación con vivir con la EC más allá de la dieta, como son los problemas sociales y emocionales que tienen estos pacientes.

Estos autores al igual que los otros estudios realizados con cuestionarios específicos observaron que las puntuaciones medias de CV eran diferentes cuando se utilizaba el cuestionario genérico y el específico. Resaltando que al cumplimentar cuestionarios genéricos se obtienen mejores puntuaciones de CV

dado que no se centran en los aspectos específicos de la enfermedad que afectan la vida de estos pacientes.

4.2.3 ESTUDIOS DE CV EN NIÑOS CELÍACOS UTILIZANDO MÉTODOS CUALITATIVOS

Recientemente otros investigadores han utilizado métodos cualitativos para evaluar la CVRS en estos pacientes:

Biagetti C. y col[97] evaluaron la CV de un grupo de niños celíacos utilizando una herramienta de investigación cualitativa, la técnica de incidentes críticos (preguntas abiertas) y observaron un impacto negativo de la enfermedad en la CV de estos pacientes.

Estos autores opinan que los cuestionarios utilizados hasta la fecha no evalúan fácilmente la CV, mientras que el análisis cualitativo proporciona información acerca de las dificultades que los niños con EC tienen para sobrellevar la enfermedad debido a la limitada disponibilidad de productos sin gluten. Estos aspectos psicológicos y sociales deberían ser tenidos en cuenta en el manejo de los niños y adolescentes afectados por la enfermedad. Los principales problemas con los que se enfrentan estos pacientes no tienen relación con la calidad de los productos sin gluten, que cada vez es mejor, sino que tienen relación con el pobre conocimiento sobre esta enfermedad y su tratamiento por parte de la población general y la baja disponibilidad de alimentos libres de gluten en la mayoría de restaurantes y cafeterías. Estos autores creen que dichos problemas podrían superarse mediante campañas de información dirigidas y capacitación del personal.

Skjerning H y col[98] también utilizaron un método cualitativo y encontraron 2 categorías principales a tener en cuenta al evaluar la CV en estos pacientes: 1*) tener la EC*, construida en 6 subcategorías: síntomas, proceso de diagnóstico, autopercepción, conocimiento de la enfermedad, impacto social y emocional de la enfermedad, y pensamientos acerca del futuro) y 2) *vivir o sobrellevar con la enfermedad, construida en 2 subcategorias:* tener que realizar la dieta sin gluten y las situaciones sociales a las que se tienen que enfrentar estos pacientes. Este cuestionario permitió identificar muchos aspectos de la EC que impacta a los niños

celiacos e ideas para hacer frente a los problemas con los que se encuentran estos pacientes. Estos autores opinan que estos hallazgos deberían utilizarse para generar un cuestionario específico de enfermedad conducido por los niños con EC.

Nordyke y col[172] realizaron otro estudio de estas características en el que se invitó a adolescentes diagnosticados por cribado a contar sus experiencias acerca de vivir con la EC a los 5 años del diagnóstico concluyendo que haber sido diagnosticados por cribado supuso un impacto en la CV de estos pacientes, muchos de los cuales percibían la EC y el tener que realizar la DSG como una imposición. Algunos se han adaptado bien a la enfermedad pero otros dudaban sobre si realmente tenían la enfermedad, incluso algunos pensaban que realizar esta dieta restrictiva puede tener consecuencias negativas para ellos y que posiblemente su esfuerzo sea en vano. Destacan estos autores la importancia de apoyar y ayudar a estos pacientes a comprender su enfermedad y realizar la DSG.

II. JUSTIFICACIÓN Y OBJETIVOS

1. HIPÓTESIS Y JUSTIFICACION DEL ESTUDIO

HIPOTESIS

1.- El cuestionario CCDUX es válido y fiable para aplicación en niños celíacos españoles en nuestro medio.

2.- La valoración de la CVRS es diferente con un cuestionario genérico y específico.

3.- Existen factores clínicos y demográficos relacionados con la CVRS.

JUSTIFICACION

En España la CVRS de los pacientes celíacos apenas ha sido estudiada, los pocos estudios publicados se han realizado en adultos, generalmente utilizando cuestionarios genéricos.[159,160] Los cuestionarios específicos de enfermedad, se han ido desarrollando posteriormente, este tipo de cuestionarios son mas precisos para valorar la repercusión de la enfermedad en la CV del paciente ya que se centran mas en el impacto de la enfermedad y el tratamiento en la CV del paciente. Se han diseñado 2 instrumentos específicos[159,161] para evaluar la CV en pacientes celíacos adultos. En España, recientemente se ha adaptado transculturalmente uno de estos cuestionarios.[162]

Los estudios realizados en niños son mas limitados aún. El cuestionario CDDUX elaborado en Holanda, fue el primer cuestionario específico elaborado para niños celiacos. Las peculiaridades de este cuestionario, principalmente el ser el primer instrumento específico de CVRS en niños celíacos, y la ausencia de un instrumento de estas características en nuestro país motivó nuestro interés en adaptarlo transculturalmente para poder utilizarlo en nuestro medio.

Por otra parte, dado que para una valoración mas completa de la CVRS sería necesario la utilización de un cuestionario genérico que recoja los aspectos de la vida cotidiana y otro cuestionario específico de enfermedad, se seleccionó además un cuestionario genérico para aplicar junto con el cuestionario específico.

El cuestionario elegido fue el cuestionario genérico Kidscreen, que fue seleccionado por 3 motivos:

1.- Por haber sido elaborado y validado en España.

2.- Por ser el único cuestionario desarrollado simultáneamente en varios países europeos, lo que facilitaría las comparaciones internacionales.

3.- Por haber sido diseñado para su aplicación en niños del mismo rango de edad que el cuestionario CDDUX (8-18 años).

Existen 3 versiones de este cuestionario, se eligió la versión de 52 ítems, aunque supone mayor tiempo de cumplimentación, con el fin de obtener la mayor información posible.

OBJETIVO DEL ESTUDIO

1.- Realizar la adaptación transcultural y evaluar la fiabilidad y validez del cuestionario específico de calidad de vida relacionado con la salud, elaborado en Holanda (CDDUX), para su utilización en niños celíacos españoles de 8 a 18 años.

2.- Evaluar la percepción de CVRS de un grupo de niños celíacos españoles de 8-18 años y sus padres, utilizando un cuestionario genérico (kidscreen) y un cuestionario específico de enfermedad (CDDUX) previamente adaptado por nuestro grupo y analizar la correlación existente entre ambos cuestionarios.

3.- Identificar la presencia de factores relacionados con la calidad de vida relacionada con la salud utilizando ambos cuestionarios.

4.- Comparar los resultados de nuestro estudio con los trabajos publicados.

III. MATERIAL Y MÉTODOS

1.- AMBITO DE APLICACIÓN

Se invitó a participar en el estudio a los niños con enfermedad celíaca de 8 a 18 años, miembros de la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de Madrid (ACySGM), con el fin de tener una muestra representativa de toda la Comunidad Autónoma de Madrid.

La ACM es una asociación independiente y sin ánimo de lucro que cuenta con más de 8.000 socios con enfermedad celíaca y/o Dermatitis Herpetiforme, y cuyo objetivo es mejorar la calidad de vida de las personas afectas de esta enfermedad. Esta asociación proporciona a los pacientes información práctica sobre la enfermedad y la dieta sin gluten, les ayuda a hacer frente a la enfermedad en las fases iniciales y evolutivamente a todos los problemas en relación con la dieta o su enfermedad, y les ofrece asesoramiento nutricional, en los problemas sociales y educativos, promocionando múltiples actividades con el fín de contribuir al bienestar de este colectivo.

2.- DISEÑO DEL ESTUDIO

Estudio observacional con recogida de información de forma prospectiva, sobre la CVRS en niños con enfermedad celíaca de 8 a 18 años, utilizando 2 cuestionarios de calidad de vida, el cuestionario genérico Kidscreen elaborado y validado para su utilización en niños de 8 a 18 años en nuestro medio y el cuestionario específico de enfermedad celíaca (CDDUX) elaborado en Holanda para niños del mismo rango de edad, previamente adaptado transculturalmente y validado por nuestro grupo.

3.- SUJETOS DE ESTUDIO

Se invitó a participar a todos los niños celíacos con edades comprendidas entre 8 y 18 años miembros de la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de Madrid con correo electrónico.

- Criterios de inclusión:

Niños celíacos con edades comprendidas entre 8-18 años que realizaran dieta sin gluten.

Que tuvieran correo electrónico, dado que los cuestionarios se enviaban por e-mail.

Sin restricción de tiempo tras el diagnóstico ni de tiempo tras la retirada de gluten de la dieta.

4.- TAMAÑO MUESTRAL

Se calculó un tamaño muestral necesario de 222 niños celíacos con edades comprendidas entre 8 y 18 años. Este tamaño se justifica para la variabilidad de los ítems del cuestionario CDDUX y del cuestionario Kidscreen. La desviación estándar mas alta de dichos estudios fue de 22,8. [87,134,135] Se estimó para una precisión del 3% y un nivel de confianza del 95%. Este tamaño muestral permitía cubrir el resto de objetivos.

Teniendo en cuenta el número de niños celíacos afiliados en el momento del estudio a la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de Madrid (n= 3122) y que según trabajos previos el grado de participación de pacientes pertenecientes a asociaciones de celíacos en este tipo de estudios es alto,[3,59,66] se esperaba tener una muestra de aproximadamente 500 de los 3122 niños celíacos de entre 8 y 18 años afiliados en este momento en la Asociación de Celíacos de Madrid.

5.- VARIABLES DEL ESTUDIO

5.1) ***Variables independientes:*** fecha de nacimiento, año de diagnóstico, edad al rellenar la encuesta estratificada al igual que la versión original del cuestionario CDDUX en 3 grupos: niños (8-11 años), adolescencia temprana (12-15 años) y adolescencia tardía (16-18 años); género; profesión de los padres (ama/o de casa, desempleado ,empresario, funcionario, trabajador por cuenta ajena); nivel de estudios (no estudios, estudios primarios, estudios secundarios o estudios universitarios); situación familiar de convivencia (con ambos padres , solo con uno de ellos, o con otros familiares)

Variables independientes relacionadas con la clínica:

- **Forma de presentación clínica al diagnóstico** (forma clásica, forma no clásica, diagnóstico por cribado y Dermatitis Herpetiforme)
- **Antecedentes familiares de enfermedad celíaca** (no, si de primer grado o si de segundo grado).
- **Enfermedades asociadas** (no, diabetes tipo I, enfermedad tiroidea autoinmune, déficit de inmunoglobulina A, síndrome de Down, otras, diabetes tipo I + déficit de IgA).
- **Control de la enfermedad**: frecuencia de realización de revisiones médicas (nunca, ocasionalmente, cada 3 meses, cada 6 meses, anualmente, cada 2 años).
- **Adherencia a la dieta sin gluten** : siempre, la mayoría de veces, algunas veces, nunca.
- **Dificultades para realizar la dieta**: no, si por motivos económicos, si por motivos sociales o si por inseguridad al comer fuera de casa.
- **Presencia de síntomas con las transgresiones (si/no)**

***5.2) Variable dependiente*: medida de calidad de vida en un rango de puntuaciones de 0-100 puntos.**

6.- DESCRIPCIÓN DE LOS CUESTIONARIOS

6.1.- CUESTIONARIO KIDSCREEN

El cuestionario genérico KIDSCREEN-52 es un cuestionario de tipo autoadministrado, elaborado para su utilización en niños y adolescentes de 8 a18 años de edad. Contiene 52 ítems que evalúan 10 dimensiones de CVRS elaboradas según un modelo Rasch.: Aceptación social, estado de ánimo, bienestar físico, bienestar psicológico, autopercepción, entorno escolar, relación con los padres y vida familiar, recursos económicos, autonomía, relaciones con los amigos y apoyo social. Este cuestionario proporciona una información detallada del perfil de salud para estas diez dimensiones de CVRS. Existen 2 versiones, una para niños y otra para padres, que deben ser cumplimentadas de forma independiente. Requiere unos 15-20 minutos para su cumplimentación.

La dimensión ***aceptación social*** recoge las experiencias en relación con la aceptación por parte de los/las compañeros/as. Se les pregunta si han tenido miedo de sus compañeros, si sus compañeros se han reído de ellos ó si se han sentido intimidados o amenazados por otros chicos (3 ítems). La dimensión de ***estado de ánimo y emociones*** recoge las experiencias negativas, los estados depresivos y las sensaciones de estrés del niño/a o adolescente. Se les pregunta si se han sentido tristes, hartos, solos, bajo presión o si creen que todo les sale mal (7 ítems). La dimensión ***bienestar físico*** explora en general si se encuentran en una buena forma física (4 ítems), mientras que la de ***bienestar psicológico*,** se centra en los sentimientos (se les pregunta si han disfrutado de la vida, si están contentos o satisfechos con la vida, si están de buen humor, contentos, o si se sienten divertidos). La dimensión de ***autopercepción*** intenta averiguar cómo perciben su apariencia física e imágen corporal y la satisfacción relacionada con ellas. Se les pregunta si están contentos con su forma de ser, con su ropa, con su aspecto, si tienen envidia de los demas, si hay cosas de su aspecto que les gustaría cambiar

(5 ítems). La dimensión ***entorno escolar*** explora las percepciones acerca de la propia capacidad cognitiva y de concentración, además de las sensaciones acerca de la escuela. Se les pregunta si es han sentido felices en el colegio, si están satisfechos de sus profesores, si les gusta ir al colegio, si prestan atención (6 ítems). La dimensión de ***relación con los padres y vida familiar*** pregunta por la relación con sus padres, si se sienten comprendidos por ellos, si son felices en casa, si se sienten tratados de forma justa, si pueden hablar con ellos cuando quieren (6 ítems). La dimensión de ***recursos económicos*** recoge la percepción sobre la capacidad financiera del niño, si tiene dinero suficiente para sus gastos, para hacer cosas con sus amigos (3 ítems). La dimensión ***autonomía*** recoge las oportunidades percibidas para realizar actividades en el tiempo libre. Se les pregunta si han tenido tiempo suficiente para ver a sus amigos o para hacer las cosas que quieren en su tiempo libre, si han podido elegir que hacer en su tiempo libre, si tienen suficiente tiempo para ellos mismos (5 ítems). La dimensión ***apoyo social y relación con amigos o iguales*** recoge el tipo de relación con los/as compañeros/as. Se les pregunta si pueden hablar, o hacer cosas con los amigos, si confían en ellos, si se ayudan entre sí, si pueden hablar de todo con ellos (6 ítems).

Las respuestas se categorizan en escalas Likert de 5 opciones, que evalúan la frecuencia o, en algunos casos, la intensidad del atributo, con un período recordatorio de una semana en la mayoría de preguntas.

Las opciones de respuesta posible se muestran a continuación:

- Excelente, muy buena, buena, regular y mala (en 1/10 dimensiones).

- Muchísimo, mucho, moderadamente, un poco o nada(en 2/10 dimensiones).

- Siempre, casi siempre, algunas veces, casi nunca o nunca (en 8/10 dimensiones)

Las puntuaciones medias se estandarizaron a una media de 50 y una desviación estándar de 10.

Al igual que en el instrumento original, las dimensiones del KIDSCREEN se obtuvieron a partir de las puntuaciones medias de los ítems, recogidos en la escala de Likert con 5 opciones de respuesta. Las puntuaciones se transformaron en una escala de 0 a 100 para facilitar su interpretación , donde a mayor puntuación se consideraba que tenían mejor calidad de vida.

6. 2.- CUESTIONARIO CDDUX

El cuestionario específico CDDUX consta de 12 ítems con 3 escalas: dieta (6 ítems) comunicación (3 ítems) y tener la enfermedad celíaca (3 ítems). La escala de “comunicación” proporciona información acerca de cómo se sienten los niños cuando hablan de la enfermedad celíaca con otras personas y cuando les tienen que explicar lo que es la enfermedad. La escala "tener la EC" proporciona información de como se sienten cuando les ofrecen alimentos que contienen gluten y cuando piensan en alimentos que contienen gluten. La escala “dieta” da una impresión de cómo se siente el paciente celíaco respecto a tener que realizar una dieta restrictiva toda la vida.

Este cuestionario tiene 2 versiones, una para niños/adolescentes y otra para padres, de tipo autoadministrado, que deben ser cumplimentadas de forma independiente. Cada uno de los ítems tiene 5 opciones de respuesta que se representan en formas de caritas. Las distintas expresiones faciales representan como se sienten los niños (muy bien, bien, normal, regular o mal), debiendo señalar los pacientes y sus padres la carita que más se corresponde con lo que sienten sobre los distintos aspectos de su enfermedad. Esta forma de representación facilita la cumplimentación en los niños de menor edad.

Para facilitar la interpretación, las puntuaciones se transformaron en una escala de Likert de 5 puntos, con rango de 0-100, considerando que la puntuación de 1-20 se corresponde con una CVRS muy mala, de 21-40 mala, de 41-60 neutra, 61-80 buena y 81-100 muy buena, tal y como habían realizado los autores del cuestionario original.

El cuestionario se centra en las consecuencias de la enfermedad y en lo que niños y padres piensan acerca de la enfermedad y tener que realizar una dieta sin gluten.

7.- ADAPTACIÓN TRANSCULTURAL DEL CUESTIONARIO CDDUX AL ESPAÑOL

Se contactó con los autores del cuestionario CDDUX a los que se solicitó autorización para utilizar el cuestionario. Se efectuó la adaptación transcultural siguiendo la metodología sistemática de traducción-retrotraducción, internacionalmente consensuada.[119,173,174] Dos traductores bilingües de origen español realizaron de forma independiente la traducción directa del inglés al español (primera versión española) y un traductor bilingüe de origen inglés realizó la retrotraducción al inglés. Se enviaron las versiones española e inglesa a uno de los autores del CDDUX bilingüe y de origen español, que analizó la equivalencia conceptual de cada uno de los ítems con los de la versión original, elaborándose la segunda versión española. Por último se solicitó a un grupo reducido de niños celíacos de 8-18 años y a sus padres (n=10) la cumplimentación de la encuesta con el fin de identificar si algún ítem generaba confusión en cuanto a su interpretación, tras lo cual se obtuvo la versión definitiva del cuestionario adaptada al español. Posteriormente se realizó la validación del instrumento comprobando las propiedades psicométricas del mismo.

8.- EVALUACIÓN DE LA FIABILIDAD Y VALIDEZ DE LA VERSIÓN ESPAÑOLA DEL CUESTIONARIO CDDUX

Para evaluar la fiabilidad y validez de la versión española del cuestionario CDDUX, se envió la versión española definitiva del CDDUX a todos los niños de 8-18 años miembros de la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de Madrid de los que se disponía de correo electrónico y sus padres.

Se envió simultáneamente el cuestionario Kidscreen para poder llevar a cabo el segundo objetivo del estudio.

Se enviaron 2 correos distintos para niños y padres a través de los cuales los niños o niñas y padres que quisieron participar, podían acceder a la siguiente documentación:

En primer lugar, accedían a una hoja informativa en la que se les invitaba a participar en el estudio y se les informaba del objetivo del estudio y de la confidencialidad de los datos obtenidos. Se enviaron instrucciones para contestar la encuesta por internet en caso de estar interesados en participar. Se accedía a la encuesta a través de un enlace.

Se enviaron 4 enlaces:

- 1) Para el padre o la madre de las niñas celíacas: www.celiacosmadrid.org/qus/pa.html

- 2) Para las niñas celíacas:www.celiacosmadrid.org/qus/y.html

- 3) Para el padre o la madre de los niñoscelíacos :www.celiacosmadrid.org/qus/po.html

- 4) Para los niños celíaco:www.celiacosmadrid.org/qus/z.html

En el enlace enviado a los padres se remitió la siguiente documentación:

1) Consentimiento informado que debían aceptar antes de poder acceder a la encuesta.

2) Hoja de datos demográficos, en la que se recogía la siguiente información:

- Fecha de nacimiento.
- Año en que se diagnosticó la enfermedad.
- Profesión de padre y madre (empresario, funcionario, trabajador por cuenta ajena, sus labores o desempleado) y nivel de estudios (sin estudios, estudio primarios, estudios secundarios, estudios universitarios)

- Situación familiar respecto a la convivencia o no con el celíaco: ambos, padres, uno u otro, otros familiares, uno de los padres y su pareja actual.
- Forma de presentación clínica al diagnóstico.
- Antecedentes familiares de celiaquía y en caso de tenerlo, grado de parentesco con el familiar afecto (primer grado y segundo grado).
- Presencia de enfermedades asociadas, no o bien en caso de tenerlas , cual de ellas de entre las siguientes opciones: Diabetes tipo I, Enfermedad tiroidea autoinmune, Síndrome de Down, Déficit selectivo de IgA, con la posibilidad de elegir una o varias de estas enfermedades.
- Datos de control de la enfermedad y frecuencia de realización de revisiones médicas (cada 3 meses, 6 meses, al año, cada 2 años, solo de forma ocasional o nunca).
- Datos de cumplimiento de la dieta sin gluten (siempre, mayoría de las veces, algunas veces o nunca).
- Datos de autocumplimiento y si dificultades para realizar la dieta sin gluten (no, si por motivos ecónomicos, si por relaciones sociales, si por inseguridad a comer fuera de casa).
- Presencia o no de síntomas cuando realizan trasgresiones.

3) Cuestionario CDDUX para padres de niño o niña celiaco.

4) Cuestionario kidscreen para padres.

En el enlace enviado a paciente celíaco se enviaba la siguiente información

1) Consentimiento informado (si > o igual de 12 años).

2) Hoja de datos demográficos preguntando solo fecha de nacimiento y año de diagnóstico de la enfermedad (no se preguntaron mas datos a los niños para evitar duplicidad de datos y posibles confusiones si se preguntaba a ambos. Con estos 2 datos sería suficiente para poder identificar los registros de los niños y poder compararlos con los de sus padres).

3) Cuestionario CDDUX para niño o niña celíaco (diferente según género)

4) Cuestionario Kidscreen para niño/a celíaco.

Una vez que pulsaban en el enlace correspondiente accedían al consentimiento informado que debían leer y aceptar marcando la casilla correspondiente de aceptación, para poder acceder a las encuestas, no pudiendo acceder a las mismas sin haber aceptado el consentimiento previamente. La persona que cumplimentaba la encuesta debía contestar todas las preguntas, y pulsar el botón 'Enviar' al final de la vista de cada uno de los 4 documentos enviados. No podían acceder al siguiente documento sin haber cumplimentado por completo el documento previo. Esto se hizo con el fin de evitar que remitieran cuestionarios incompletos.

En la hoja informativa se aconsejaba que tanto padres como niños celíacos contestaran los cuestionarios de forma individual para evitar posibles influencias en las respuestas.

Las encuestas estuvieron accesibles durante un mes y medio (desde primeros de noviembre a mitad de diciembre del 2011), el tiempo que se precisó hasta conseguir el tamaño muestral deseado.

Todas las encuestas que contestaban los padres /niños se almacenaban en una cuenta de correo.

9. ANÁLISIS ESTADÍSTICO

Para el estudio de las propiedades psicométricas del cuestionario CDDUX se calculó el coeficiente alfa de Cronbach global y por dimensiones para los 12 ítems, en niños y padres, como una medida de la consistencia interna del cuestionario (fiabilidad intracuestionario).[119] Se consideró como aceptable una consistencia interna de ≥ 0,70. La aceptabilidad del instrumento se analizó a partir de los valores perdidos en cada dimensión. La fiabilidad de las puntuaciones del cuestionario entre observadores (padres-hijos) se calculó con el coeficiente de correlación intraclase y su IC 95%.[120] Los valores están comprendidos entre 0 y 1; se considera excelente si es >0,8, buena >0,6, moderada >0,4 y mala <0,4. El análisis descriptivo de las variables demográficas y de los datos clínicos se realizó utilizando la media y desviación estándar (DE) o mediana y rango intercuartílico, en caso de asimetría. Se calculó la distribución de frecuencias de las variables

cualitativas. Los datos referentes a las puntuaciones del cuestionario en las diferentes dimensiones se expresaron en media (DE). Para el estudio de la validez del constructo se compararon las puntuaciones medias mediante ANOVA, según las variables demográficas y clínicas incluidas. Las diferencias se estimaron a partir de la magnitud del efecto, considerando que eran relevantes si suponían un cambio en el rango de puntuación de la escala de Likert o si había una diferencia de puntuaciones medias de 10 o más puntos. Se realizó la comparación emparejada de la media de las diferencias de las puntuaciones entre niños y padres con el test de la T de student emparejada. En el caso de las variables cualitativas (pregunta 1º del Kidscreen) se utilizó el test de Mc Nemar y el índice de Kappa ponderado.

La comparación independiente entre variables cuantitativas se realizó con la t de Student o ANOVA y los test de U de Mann-Whitney y Kruskall-Wallis en caso de asimetría. Se utilizó el test de Fisher o la $\chi 2$ para variables cualitativas. Se utilizó la corrección del nivel de significación de Bonferroni para la comparación posterior de las medias 2 a 2.

Se ajustaron modelos de regresión lineal múltiple para identificar variables independientes que pudieran influir en la CVRS (demográficas y clínicas). Se incluyeron las variables que en el análisis univariable obtuvieron una significación estadística $p<0,05$**.**

Se compararos las puntuaciones medias obtenidas en nuestra muestra con los datos recogidos en publicaciones de series internacionales.

En todos los contrastes se rechazó la hipótesis nula con un error alfa menor de 0,05. Para evaluar la correlación entre las dimensiones de ambos cuestionarios se utilizó el coeficiente de correlación de Pearson (r) cuyos valores están comprendidos entre -1 y 1; se considera una correlación positiva perfecta y la relación es directa si r=1, si r Si $0 < r < 1$, existe una correlación positiva, si r =0 no existe relación lineal, si r= $-1 < r < 0$, existe una correlación negativa, si r=-1, , existe una correlación negativa perfecta y la *relación es inversa*: cuando una de ellas aumenta, la otra disminuye en proporción constante.

Los datos fueron procesados con el programa estadístico SPSS 20,0 para Windows. (*Statistical Package for the Social Sciences*).

10. CONSIDERACIONES ÉTICAS

La participación en este estudio no supuso un riesgo adicional para las personas participantes, ya que se trata de un estudio epidemiológico en el que no se realizó ninguna intervención. El estudio se llevó a cabo según las recomendaciones éticas internacionales (Declaración de Helsinki y Convenio de Oviedo)[175], de acuerdo a la legislación vigente que rige los proyectos de investigación sin medicamentos, la ley de Investigación Biomédica del 3 de julio 2007, para lo que se presentó para su valoración al Comité Ético de Investigación Clínica del Hospital Universitario de Fuenlabrada, Madrid. Toda información referente a la identidad de las personas participantes en el estudio se consideró confidencial. Los datos de las personas recogidos en las encuestas durante el estudio se documentaron de manera anónima y disociada. En lo referente a los datos del estudio se siguió lo establecido en la ley Orgánica 15/1999 de 13 de diciembre de "Protección de datos de carácter personal". Se obtuvo el consentimiento de los individuos para la participación en el estudio informándoles de las características y naturaleza del estudio, así como que sus datos fueran recogidos y procesados garantizándose la confidencialidad de los mismos. (Anexos).

La base de datos que generó el estudio no incluyó identificación alguna de las personas, por lo que quedó garantizado el anonimato de las personas.

FINANCIACIÓN

Este proyecto ha sido financiado parcialmente por la concesión de ayudas del subprograma de proyectos de investigación en salud, dentro de la acción estratégica de salud. Instituto de Salud Carlos III. Diciembre 2012 – 2012-2015. PI12/01183: EVALUACION DE LA VALIDEZ Y FIABILIDAD DE UN CUESTIONARIO ESPECIFICO DE CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD EN CELÍACOS DE 8-18 AÑOS (EC523).

IV. RESULTADOS

1.- Población de estudio

Se seleccionaron 1602 de los 3122 socios afiliados en el momento de realizar el estudio a la ACySGM (51,31%), que eran los que tenían correo electrónico. Se incluyeron aquellos pacientes y padres que cumplimentaron por completo las encuestas on-line. En la figura 1 se expone detalladamente la población incluida en el estudio.

Contestaron el primer cuestionario (CDDUX) 480 socios (29,9% del total; 480/1602). Fue completado por los niños y sus padres en 214 casos (44,5%), sólo por el padre/madre en 214 (44,5%) y sólo por los niños en 52 (10,8%). Por tanto, esta encuesta fue contestada por 266 niños y 428 padres.

Contestaron además el segundo cuestionario (Kidscreen) 434 (27,09% de los socios; 434/1602). Fue completado por los niños y sus padres en 208 casos (47,9 %), sólo por el padre/madre en 179 (41,24 %) y sólo por los niños 47 (10,8%). Por tanto, esta encuesta fue contestada por 255 niños y 387 padres. El 4,1% de los niños no contestaron el segundo cuestionario.

En el 82% de los casos fue la madre quien contestó; solo en un caso la encuesta fue contestada por ambos padres. El 9,7% no cumplimentó el segundo cuestionario.

Los datos demográficos se obtuvieron de niños y padres, salvo la profesión y el nivel de estudios de los padres y la situación de convivencia, que junto con los datos clínicos fueron respondidos por los padres. Las puntuaciones medias de CVRS se obtuvieron de niños y padres.

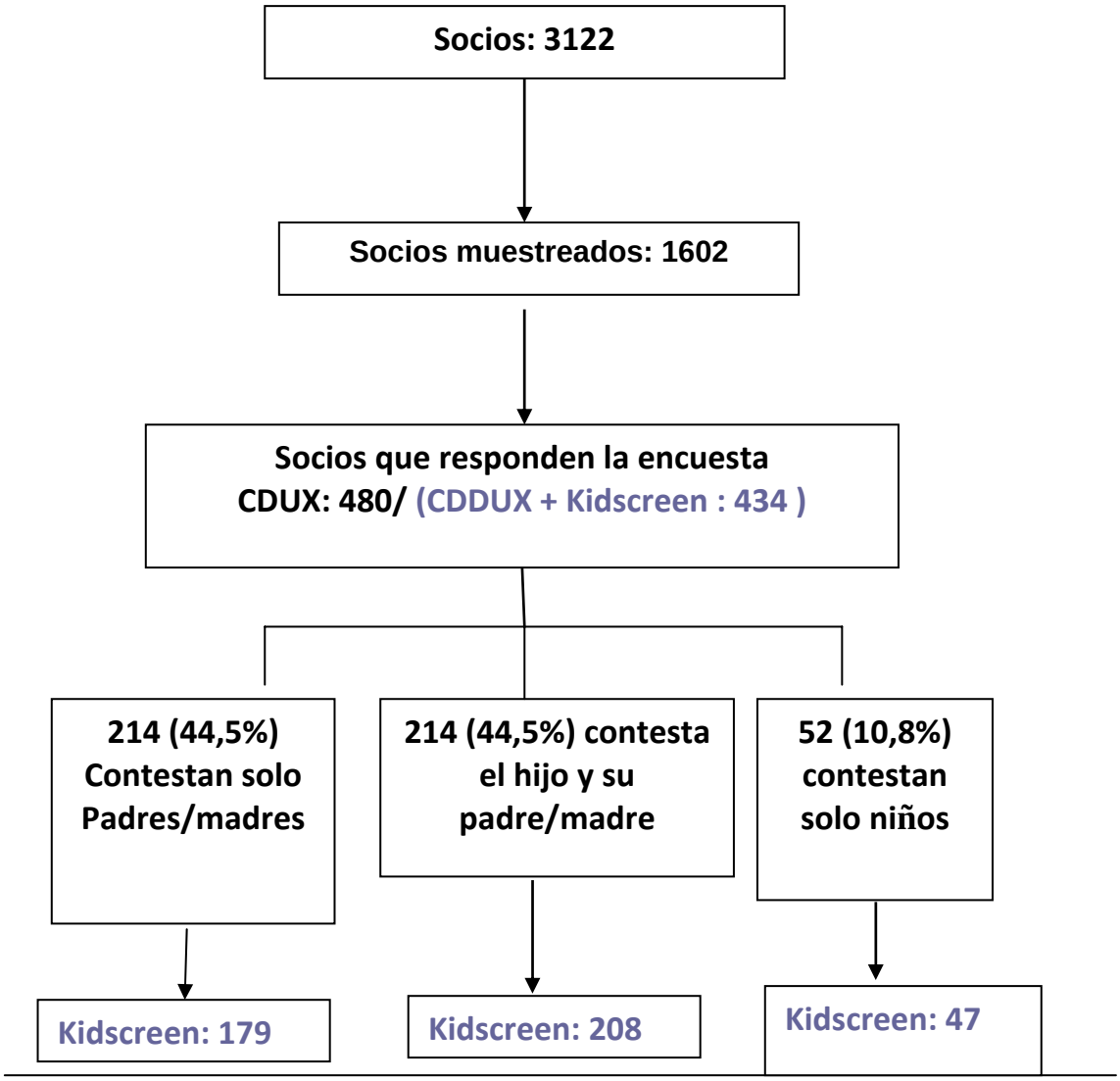

Figura 1. Diagrama de flujo de la selección de la población incluida en el estudio

1.1.- Datos demográficos en el momento de cumplimentar la encuesta

Se analizaron los datos demográficos de los 480 niños que responden, por género y grupos de edad, como puede verse en la tabla 4. El 60% (n=288) eran mujeres, la media de edad fue de 12,4 años (DE 2,8) y el 47% (n=225) tenía entre 12-15 años de edad en el momento de cumplimentar la encuesta. No hubo diferencias en la media de edad según el género (niños: 12,3 años (DE 2,9) y niñas: 12,4 años (DE 2,8) respectivamente, (p=0,50). Tampoco las hubo entre los 2 géneros en la distribución por tramos de edad: niños de 8 a 11 años: 41,1%; de 12 a 15 años: 45,8%; y de 16 a 18 años: 13%. Niñas de 8 a 11 años: 37,8%; de 12 a 15 años: 47,6%; y de 16 a 18 años: 14,6% (p=0,74).

En la figura 2 se representan estos resultados de forma gráfica.

Tabla 4. Datos de los 480 niños que contestaron el cuestionario CDDUX por género y grupos de edad

	1.- N=266			2.- n = 214			N= 480		
	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL
8-11	35 (35,4)	53 (31,7)	88(33)	44 (47,3)	56 (46,3)	100 (46,7)	79(41,1)	109 (37,8)	188 (39,2)
12-15	49 (49,5)	85(50,9)	134(50,4)	39 (42)	52 (43)	91 (42,5)	88(45,8)	137 (47,6)	225 (46,9)
16-18	15 (15,2)	29 (17,4)	44(16,6)	10 (10,7)	13(10,7)	23 (10,7)	25 (13)	42 (14,6)	67 (14)
TOTAL	99 (100)	167 (100)	266	93 (100)	121 (100)	214	192 (100)	288 (100)	480

1.- Niños que contestaron solo ellos el cuestionario.
2.- Niños que contestaron solo sus padres el cuestionario.
3.- Respuestas totales de niños 480. fueron contestadas solo por el niño y solo los padres 214.

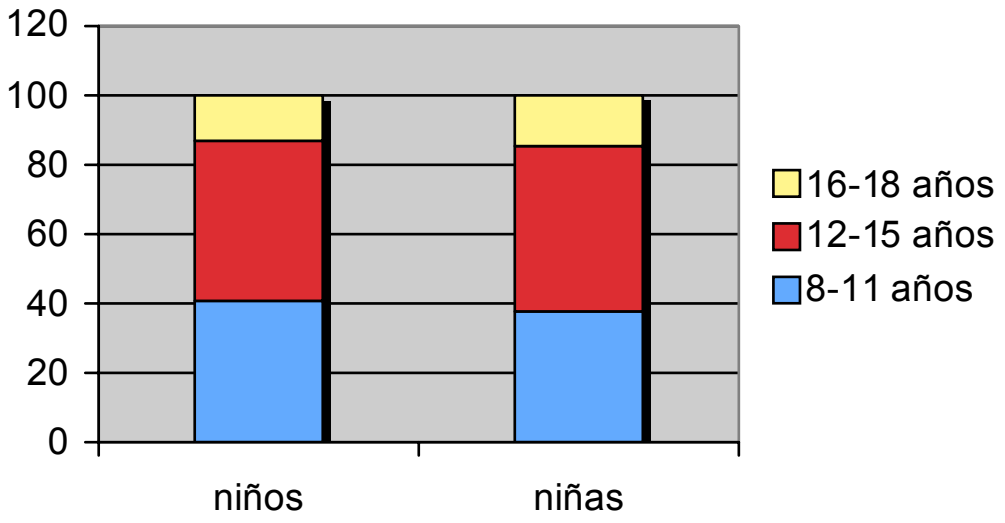

Figura 2. Niños que contestaron el cuestionario (n=480): distribución por género y grupos de edad

El 89,5% de los niños (n =383) convivían con ambos progenitores, 8% (n=34) solo con su madre y el 2% (n=9) con padre o madre y otra pareja. **Tabla 5**

La mayoría de los padres eran trabajadores por cuenta ajena (60,5% de los padres y 47,7% de las madres). Eran funcionarios el 14,5% de los padres y el 20,6% de las madres , empresarios el 18,2% de padres y 9,6% de madres, ama de casa el 1,4 % de padres y el 14,3 % de madres y desempleados el 7,9 % de madres y el 5,4 % de los padres.

El grupo mayoritario tenía estudios universitarios (46% de los padres vs 49,1% de las madres), seguido de los que tenían estudios secundarios (36,4% de los padres vs 39,1% de las madres) y estudios primarios (17,3% de los padres vs 13,8% de las madres). Ningún padre refería no tener estudios. No se encontraron diferencias en la distribución en función del género.

Tabla 5. Datos demográficos de los 428 padres que contestaron CDDUX

Datos obtenidos de los 428 padres que contestan	
Contesta: padre / madre	77 (18%) / 351 (82%)
Convivencia	
• Ambos padres	383 (89,5%)
• Madre	34 (7,1%)
• Padre	1 (0,2%)
• Madre / padre + pareja actual	9 (1,9%)
• Otros	1 (0,2%)
Profesión padres (padre/ madre)	
• Trabajadores por cuenta ajena	259(60,5%) / 204(47,7%)
• Funcionarios	62 (14,5%) / 88 (20,6%)
• Empresarios	78(18,2%) / 41(9,6%)
• Ama de casa	6(1,4%) / 61 (14,3%)
• Desempleados	23(5,4%) / 34 (7,9%)
Nivel de estudios	
• **Sin estudios**	1(0.2%)/ -----
• **E. Primarios**	74 (17,3%)/ 59(13,8%)
• **E. Secundarios**	156 (36,4%)/ 159 (37,1%)
• **E. Universitarios**	197(46%)/ 210 (49,1%)

1.2.- Datos clínicos

Se analizaron los datos clínicos de los 428 niños cuyos padres contestaron el cuestionario CDDUX, como puede verse en la **tabla 6**. No se pudo incluir, por tanto, los datos de los 52 niños que solo ellos contestaron el cuestionario, puesto que, como anteriormente se ha mencionado, solo proporcionaban los datos clínicos los padres, para evitar duplicidad de la información.

- **Edad al diagnóstico**

La mediana de edad al diagnóstico fue de 2 años (RIC 2-5) sin diferencias por género (p = 0,126) ni por grupos de edad (p=0,25). Fueron diagnosticados el 60% de los niños en los 2 primeros años de vida, el 22% entre los 3-7 años y el 18% con una edad superior a los 7 años de edad.

Al estratificar la edad al diagnóstico, se encontraron diferencias en función del género (p=0,04), siendo diagnosticados: antes de los 2 años 125 niños (65%) vs 162 niñas (56%) niñas , entre los 3 y 7 años 42 niños (21,9%) vs 63 niñas (21,9%) y a una edad superior a 7 años 25 niños (13%) vs 63 niñas (22%).

- **Tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico**

El tiempo medio de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico fue de 8,4 (DE 4,2) sin diferencias en función del género (p=0,28) o grupo de edad (p=0,32). En el momento de contestar la encuesta, el 48% llevaba más de 8 años de evolución tras el diagnóstico, el 33,4% entre 5-8 años y el 18,6% menos de 4 años.

- **Antecedentes familiares de EC**

Se encontraron antecedentes familiares en el 20,6%, siendo familiares de segundo grado el 77,3% de ellos y de primer grado el 22,7%.

- **Formas clínicas de presentación de la enfermedad**

El grupo más numeroso de niños presentó la forma clásica de la enfermedad al debut 61,4% (n=263), siguiéndole en frecuencia las formas no clásicas en el 37,4% (n=160). Sólo 3 pacientes fueron diagnosticados por cribado y 2 presentaron Dermatitis Herpetiforme (DH).

No hubo diferencias en la forma de presentación clínica en función del género (p=0,186) ni por grupos de edad (p= 0,347).

- **Enfermedades asociadas**

Se encontraron enfermedades asociadas en el 12,6% (n=54).

- **Seguimiento de la enfermedad**

Acudían a control médico una vez al año el 71,5% (n=306) y cada 6 meses el 11,4% (n=49). Referían hacerlo cada 2 años el 12,1% (n= 52). Solo acudían a control de forma ocasional el 1,2 % (n=5). Mientras que no realizaba ningún control el 2,2% de los pacientes (n=9), 4 de ellos tenían entre 12-15 años y 5 entre 16-18 años cuando cumplimentaron la encuesta.

- **Adherencia a la dieta sin gluten**

Referían cumplir la dieta siempre el 96,7%, 3% la mayoría de las veces, un paciente solo la cumplía a veces y ninguno refirió no realizarla nunca.

No hubo diferencias de cumplimiento en función del género (p= 0,362) ni por grupos de edad (p=0,495).

- **Dificultades en la realización de la dieta**

Presentaban dificultades en cuanto a la realización de la dieta el 11,2% (n= 48). De ellos, manifestaban inseguridad para comer fuera de casa el 66,7% (n=32), dificultades de tipo social el 25% (n=12) y dificultades económicas el 8,3% (n=4).

No hubo diferencias en función del género (p= 0,779) ni por grupos de edad (p=0,863).

- **Síntomas con las transgresione**s

Presentaban síntomas cuando realizaban transgresiones el 35% (n=150) de casos. Sin encontrarse diferencias en función del género (p=0,329) ni por grupos de edad (p=0,737).

No se encontró relación entre el cumplimiento de la dieta y la presencia de síntomas con las transgresiones (p=0,65). Presentaban síntomas cuando realizaban transgresiones el 35,5% (147/414) de los pacientes que cumplían la dieta siempre y el 21,4% (3/14) de los pacientes que no siempre cumplían la dieta.

TABLA 6.- Datos clínicos de los 428 niños cuyos padres contestan la encuesta CDDUX

DATOS CLÍNICOS AL CONTESTAR LA ENCUESTA	
Número de niños (contesta padre/ madre)	428 (77/351)
Mediana de edad al diagnóstico (años)	**2 (RIC 2-5)**
< 0 = 2años	**60%**
3-7 años	**22%**
> 7 años	**18%**
Tiempo medio de evolución de la enfermedad (años)	8,4 (DE 4,2)
< 4 años	**18,6%**
5-8 años	**33.4%**
> 8 años	**48%**
Antecedentes familiares de EC	20,6%
F. presentación clínica	
- Clásica	263 (61,4%)
- No clásica	160 (37,4%)
- Dermatitis herpetiforme	2 (0,5%)
- Cribado	3 (0,7%)
Enfermedades asociadas	34 (12,6%)
Control médico de la enfermedad	
• Bianual	52 (12,1%)
• Anual	306 (71,5%)
• Semestral	49 (11,4%)
• Trimestral	7 (1,6%)
• Ocasional	5 (1,2%)
• Nunca	9 (2,2%)
Cumplimiento de la dieta	
• Siempre	414(96,7%)
• Mayoría de veces	13 (3%)
• Algunas veces	1 (0,2%)
Dificultades con la dieta	
• No	380 (88,8%)
• Económicas	4 (0,9%)
• Sociales	12 (2,8%)
• Inseguridad al comer fuera	32 (7,5%)
Síntomas con las transgresiones	
• No	278 (65%)
• Si	150 (35%)

1.3.- Representatividad de la muestra

Con el objeto de evaluar si la muestra obtenida era representativa de la población objetivo del estudio (niños de 8 a 18 años asociados en la ACySGM), se compararon ambos grupos según la edad y el género, siendo la distribución homogénea, como puede verse en la **tabla 7**. No se encontraron diferencias en función del género (P=0,98). Tampoco se observó que la distribución por edades en los niños (p=0,104) y en las niñas (p=0,134) fuera diferente en la muestra y la población. Sin embargo, el grupo de niños de 12 a 15 años de la muestra es un 16,9% superior a los niños de este grupo de edad en la población diana (p < 0,001).

Tabla 7. Distribución por edad al rellenar la encuesta y género de los 480 niños respecto a la población objetivo de la Asociación de Celíacos de Madrid (ACM)

	Total .N (%)		Niños N (%)		Niñas N (%)	
	Población	Muestra	Población	Muestra	Población	Muestra
8-11	1594(51,1)	188(39,2)	675 (54)	79 (41,1)	919 (49,1)	109(37,8)
12-15	972(31,1)	225(47)	370 (29,6)	88 (45,8)	602 (32,2)	137(47,6)
16-18	556(17,8)	67 (14)	206 (16,5)	25 (13)	350 (18,7)	42 (14,6)
total	3122(100)	480 (100)	1251(40,1)	192 (40)	1871(59,9)	288 (60)
P	<0,001		0,104		0,134	

** Comparación en función del género (P=0,98)*

CUESTIONARIO CDDUX

2. 1.- Validación de cuestionario CDDUX

Como se comentó en la metodología, para validar la versión española del cuestionario se evaluaron sus propiedades psicométricas, calculando la fiabilidad intra-cuestionario mediante el coeficiente alfa de Cronbach total y por dimensiones; y la fiabilidad de las puntuaciones del cuestionario inter-respuestas de niños y padres mediante el coeficiente de correlación intra-clase.

Propiedades psicométricas de la versión española del cuestionario CDDUX

Se calculó el coeficiente alfa de Cronbach total y por dimensiones para los 12 ítems, tanto en niños como en padres, como una medida de la consistencia interna del cuestionario (fiabilidad intra-cuestionario). En la puntuación total, se obtuvo un coeficiente alfa de Cronbach de 0,90 para padres y de 0,88 para niños. El rango del coeficiente de cada pregunta o ítem con su dimensión se encontraba entre 0,75-0.90, superando el valor de 0,7 que según acuerdo internacional es preciso para considerar que existe una buena consistencia interna.

La fiabilidad de las puntuaciones entre padres e hijos se calculó mediante el coeficiente de correlación intraclase entre niños y padres y fue de 0,72 (IC 95% 0,64-0,79) para la puntuación total, de 0,63 (IC 0,52-0,72) para las dimensiones tener CD y dieta y de 0,58 (IC 0,45-0,68%) para la de comunicación. Se consideró según acuerdo internacional que la fiabilidad de respuestas entre niños y padres era buena en la puntuación total, tener EC y dieta al ser mayor de 0,6 y moderada en la dimensión comunicación al estar los valores comprendidos entre 0,4-0,6. Los resultados se exponen en la **tabla 8.**

Tabla 8. Fiabilidad intracuestionario y entre puntuaciones de niños y padres total y en las 3 dimensiones (n=214)

	Padres	Niños	
CDDUX	Coeficiente alfa de Cronbach	Coeficiente alfa de Cronbach	Coeficiente de correlación intraclase (95%CI)
TOTAL	**0.90**	**0.88**	**0.72 (0.64-0.79)**
TENER ENF. CELIACA	**0.75**	**0.80**	**0.63 (0.52-0.72)**
COMUNICACION	**0.87**	**0.80**	**0.58 (0.45-0.68)**
DIETA	**0.90**	**0.88**	**0.63 (0.52-0.72)**

2. 2.- Evaluación de la CVRS utilizando el cuestionario CDDUX

Contestaron la primera encuesta (CDDUX) 266 niños, el 62,8% (n= 167) eran niñas y de ellas el 50,4% tenían entre 12-15 años. De los otros 214 niños tenemos información a través de las contestaciones de sus padres, siendo el 56,5% niñas, y en este grupo el 46,7% tenía entre 8-11 años (n=100). **Tabla 4.**

Los niños (n=266) tuvieron una media de puntuación total de 55,48 (DE 12,72). Al analizar por dimensiones, se observó la puntuación más alta en la dimensión comunicación 72,03 (DE 16,87), seguida de la dimensión dieta 51,69 (DE 17,34) y las peor puntuación en la dimensión tener EC, 46,52 (DE 13,08). **Tabla 9.**

Los padres (n=428) obtuvieron las siguientes puntuaciones medias: en la puntuación total 54,82 (DE 12,30) y en las dimensiones tener EC, comunicación y dieta, 49,77 (DE 12,60), 69,58 (DE 15,65) y 49,98 (DE 15,72), respectivamente.

En la comparación independiente de respuestas de niños y padres **(tabla 9)**, no se encontraron diferencias significativas ni en la puntuación total, ni en las dimensiones comunicación y dieta. En la dimensión tener EC es en la única en la que los padres puntuaron mejor (p=0,001), aunque la diferencia fue solo de 3,25 puntos. Al transformar las puntuaciones en categorías de CV, la puntuación media total de niños y padres se correspondió con una CVRS "neutra". La dimensión mejor puntuada por ambos fue la de comunicación, con puntuación de CVRS "buena", mientras que en las dimensiones tener EC y dieta las puntuaciones se correspondieron con una CV "neutra".

En la figura 3 se muestran las puntuaciones medias de CVRS en niños y padres que contestaron el cuestionario CDDUX.

En la **tabla 10** se pueden observar la comparación emparejada de la media de las diferencias de cada niño con su padre (n =214). Las respuestas fueron muy similares a las encontradas en la comparación independiente. No se encontraron diferencias significativas en la puntuación total, pero si en las dimensiones tener EC (p=0,001), comunicación (p=0,048) y dieta (p=0,028), puntuando mejor los niños en todas excepto en la de tener EC. La diferencia de puntuaciones máxima fue de 3 puntos, y no supuso un cambio en el rango de puntuaciones. Al igual que en la comparación independiente, tanto niños como padres puntuaron su CV como "neutra" en la puntuación total y en las dimensiones tener EC y dieta, y como "buena" en la dimensión comunicación.

TABLA 9. Comparación independiente de las puntuaciones de niños y padres

		N	Media	DE	Diferencia d Medias	IC 95%		p
PUNTUACION TOTAL	Niño	266	55,48	12,72	0,66	53.9	57,0	0,499
	padre	428	54,82	12,30		53.7	56,0	
TENER EC	Niño	266	46,52	13,08	-3,25	44.9	48,1	0,001
	Padre	428	49,77	12,60		48.3	51,0	
COMUNICACION	Niño	266	72,03	16,87	2,45	70,0	74,1	0,052
	Padre	428	69,58	15,65		68,1	71,1	
DIETA	Niño	266	51,69	17,34	1,71	49,6	53,8	0,180
	Padre	428	49,98	15,72		48,5	51,5	

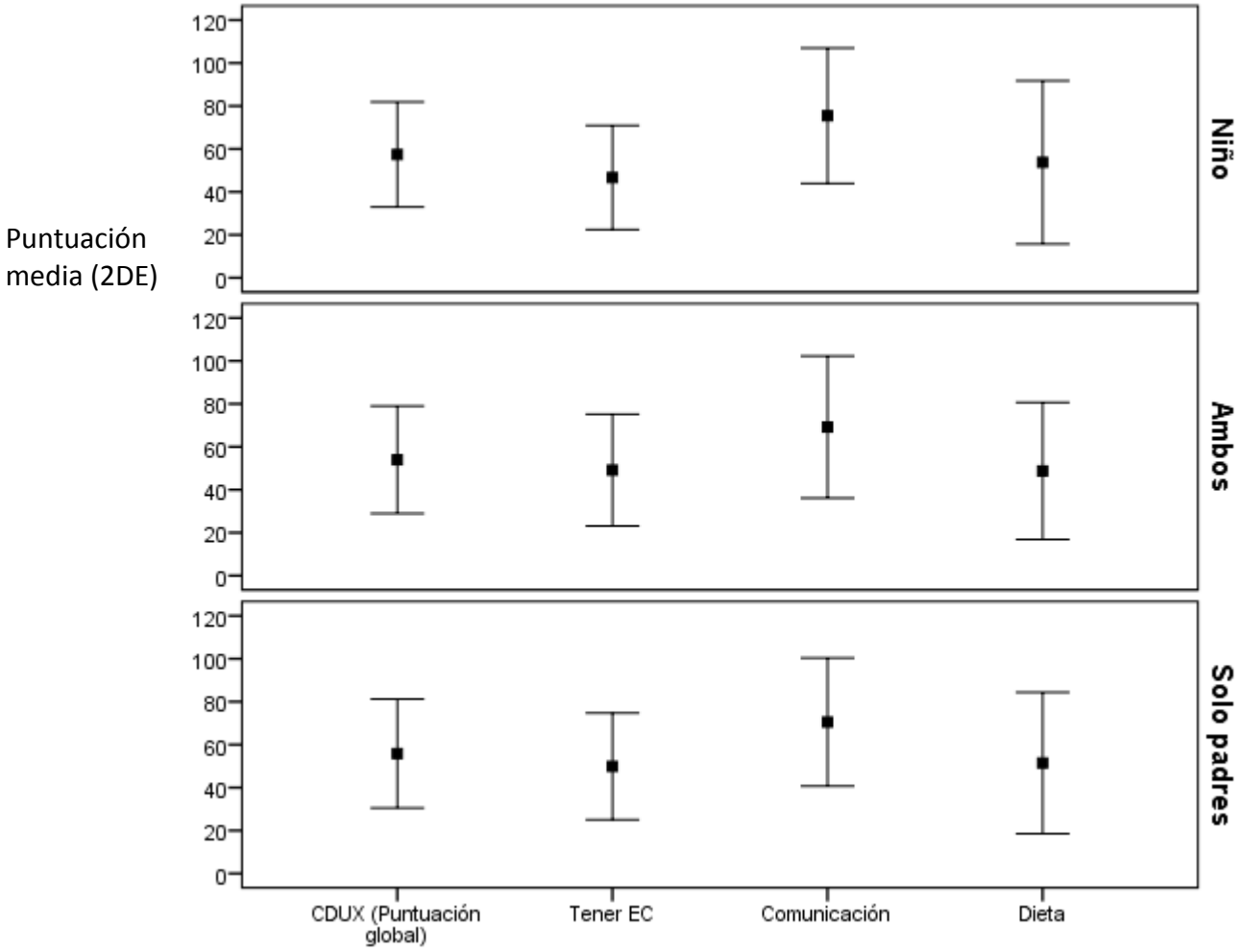

Figura 3. Puntuaciones medias de CVRS de los 480 niños que contestaron el cuestionario CDDUX.

Niño= contestaciones de los 52 niños que solo contestan ello.
Ambos= contestaciones de los 214 padres que contestaron ellos y sus hijos.
Solo padres=contestaciones de los 214 padres que contestaron solo ellos.

Tabla 10. Comparación emparejada de la media de las diferencias de las puntuaciones de niños y padres

		N	Media	DE	Media de diferencias	IC 95%		p
PUNTUACION TOTAL	Niño	214	55,02	12,82	1,13	-0,44	2,70	0,158
	padre	214	53,89	12,29				
TENER EC								
	Niño	214	46,29	13,28	-3,02	-4,83	-1,22	0,001
	Padre	214	49,31	12,90				
COMUNICACION	Niño	214	71,25	17,15	2,46	0,02	4,90	0,048
	Padre	214	68,79	16,33				
DIETA	Niño	214	51,26	16,95	2,54	0,27	4,81	0,028
	Padre	214	48,72	15,68				

Como puede verse en la **tabla 11,** se comparó además si contestaban de forma diferente los 214 padres cuyos hijos también contestaron la encuesta y los 214 padres cuyos hijos no la contestaron, sin encontrarse diferencias ni en la puntuación total (p=0,11), ni en las dimensiones tener EC (p=0, 459), comunicación (p=0,294) y dieta (p= 0,099).

Tabla 11. Comparación de respuestas de padres según contesten solo ellos o si contestan también sus hijos

	Si : Contestan padre e hijo. No: Contesta Solo padre.	N	Media	DE	p
CDUX (Puntuación total)	SI	214	53,88	12,30	0,11
	No	214	55,76	12,26	
Tener EC	Sí	214	49,31	12,90	0,46
	No	214	50,22	12,30	
Comunicación	Sí	214	68,78	16,33	0,30
	No	214	70,38	14,92	
Dieta	Sí	214	48,73	15,68	0,09
	No	214	51,23	15,71	

2.2.2.- Estudio de las variables relacionadas con la CVRS.

2.2.2.1. Análisis univariable.

En la **tabla 12** se representan todas las variables que se relacionaron con la CVRS al cumplimentar el cuestionario CDDUX. Se encontraron diferencias en las puntuaciones medias de CVRS tanto en la puntuación total como en las dimensiones respecto a las variables: edad al diagnóstico, tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico, formas de presentación clínica, adherencia a la dieta, tener dificultades con la dieta y tener síntomas con las transgresiones.

Hubo 5 variables para las cuales no se encontraron diferencias en las puntuaciones totales pero si en las dimensiones: el género, la presencia o no de síntomas con las transgresiones, el nivel de estudios de padre o madre y el tipo de convivencia. **Tabla 12.**

A continuación se pormenorizan las variables para las que se encontraron diferencias:

Género: sólo se encontraron diferencias en tener EC en la que puntuaron peor las niñas (p=0,01). La diferencia de puntuaciones fue de 3,3 puntos y tanto niños como niñas consideraron su CV como “neutra”.

Edad al diagnóstico: se observaron las puntuaciones más altas en los niños con menor edad al diagnóstico (< 2 años) y las peores en el grupo de mayor edad (> 7 años), con diferencias significativas en la puntuación global (p= 0,03) y en la dimensión de comunicación (p=0,02). La máxima diferencia de puntuaciones entre estos dos grupos de edad fue de 4,16 y 5,36 en la puntuación total y en comunicación respectivamente. Sin embargo, estas diferencias no supusieron un cambio en el rango de puntuaciones ya que, independientemente del grupo de edad, consideraron su CV como “neutra” en la puntuación total y como “buena” en la dimensión comunicación.

Tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico: las puntuaciones más altas las presentaron los niños con más de 8 años de evolución, con diferencias significativas en la puntuación total (p=0,02) y en la dimensión tener EC (p<0,001). La máxima diferencia de puntuaciones entre los grupos de mayor y menor tiempo de evolución fue de 4,37 y 4,99 puntos, en la puntuación total y en la dimensión tener EC respectivamente. No supuso un cambio en el rango de puntuaciones en ninguno de ellos, considerándose en ambos casos la CV como “neutra”.

Formas de presentación clínica: los pacientes con DH y con formas clásicas puntuaron más alto que los que habían presentado formas no clásicas y los diagnosticados por cribado, con diferencias significativas en la puntuación total y en la dimensión dieta, (p=0,01) en ambas. La peor puntuación se obtuvo en los diagnosticados por cribado en la dimensión dieta (40 puntos). La diferencia máxima se obtuvo en la puntuación total entre los diagnosticados por cribado y los que tenían DH (8,89 puntos) y en la dimensión dieta entre las formas no clásicas y los que tenían DH (9,92 puntos). Estas diferencias no supusieron un cambio en el rango de puntuaciones ya que, tanto en la puntuación total como en la dimensión dieta, consideraron la CV como “neutra”.

Adherencia a la dieta: Puntuaron mas alto los que cumplían la dieta siempre, con diferencias significativas en la puntuación total (p<0,001), comunicación (p=0,001) y dieta (p<0,001). En la puntuación total, los que cumplían la dieta siempre y la mayoría de veces consideraron su CV como "neutra" y los que solo la cumplían algunas veces la consideraron "mala". En la dimensión comunicación, consideraron la CV "buena" los que siempre cumplían la dieta, y "mala" el resto de grupos.

Las diferencias máximas se observaron en la dimensión dieta, en la que puntuaron 50,41 (15,62) los que cumplían la dieta siempre, 38,46 (13,38) los que la cumplían la mayoría de veces y 20,00 en el único paciente que solo la cumplía algunas veces. Según el rango de puntuaciones, en la dimensión dieta consideraron la CV "buena" los que siempre cumplían la dieta, "neutra" los que la cumplían la mayoría de veces y "mala" los que solo la cumplían algunas veces.

Dificultades con la dieta: las mejores puntuaciones medias se observaron en los niños que no las presentaban, con diferencias significativas en la puntuación total y en las dimensiones comunicación (p=0,04) y dieta (p<0,001). Las peores puntuaciones en todas las dimensiones las mostraron los niños que tenían dificultades sociales para cumplir la dieta. La diferencia máxima se obtuvo entre los niños que tenían dificultades sociales y los que no tenían dificultades con la dieta, siendo de 12,68, 11,92, y 16,75 puntos en la puntuación total, comunicación y dieta, respectivamente. En la puntuación total todos los niños consideraban su CV como "neutra" independientemente de si presentaban o no dificultades con la dieta. En la dimensión comunicación, todos consideraron su CV como "buena", excepto los que tenían dificultades sociales que la consideraban "neutra". En la dimensión dieta consideraban su CV "neutra" los niños que no tenían dificultades con la dieta y los que tenían inseguridad al comer fuera de casa, pero los que tenían dificultades económicas y sociales consideraron su CV como "mala".

Presencia o no de síntomas con las transgresiones: solo se encontraron diferencias en la dimensión tener EC (p=0,04), en la que puntuaron mejor los niños que no tenían síntomas cuando transgredían, con una diferencia de 2,58 puntos respecto a los que tenían síntomas. En ambos casos consideraron la CV como "neutra".

Nivel de estudios de los padres: Se encontraron diferencias en la dimensión comunicación (p =0,02) obteniéndose las mejores puntuaciones en los niños cuyos padres tenían estudios primarios 73,87 (15,12) y las peores en los que tenían estudios secundarios, con diferencia máxima de 6.35 puntos. No supuso un cambio en el rango de puntuaciones ya que todos valoraban su CV como "buena". Según el nivel de estudios de la madre se encontraron diferencias en la dimensión tener EC (p=0,02) en la que puntuaron mejor los que tenían estudios secundarios 51,99 (14,17) y peor los que tenían estudios primarios, con diferencia máxima de puntuaciones de 3,85. No supuso un cambio en el rango de CV, ya que en todos los grupos se valoró la CV como "neutra".

Tipo de convivencia: sólo se encontraron diferencias en la dimensión comunicación (p<0,001). La mejor puntuación se obtuvo en el único niño que vivía con otro familiar que no era ninguno de sus padres (100), seguido de lo que convivían con sus 2 padres 70,29 (15,57). La mínima puntuación se obtuvo en los que vivían con uno de los 2 padres y su pareja actual, 55,56 (16,33) con diferencia de 14,73 puntos. Esta diferencia es relevante, dado que supone un cambio en el rango de puntuaciones, ya que valoraron su CV como "buena" cuando vivían con sus 2 padres y como "neutra" cuando vivían con uno de sus padres y su pareja actual. También puntuaron su CV como "neutra" los que convivían solo con el padre, mientras que los que lo hacían solo con la madre la puntuaron como "buena".

Las variables en las que no se observaron diferencias, ni en la puntuación total ni en las dimensiones, fueron: edad al rellenar la encuesta, antecedentes familiares de EC, enfermedades asociadas, seguimiento de la enfermedad, profesión del padre o de la madre y cual de los padres contestaba la encuesta. **Tabla 13.**

En la **tabla 14** puede verse el resumen de todas las variables analizadas y su relación con la CVRS.

Tabla 12. Variables relacionadas con la CVRS de los 428 niños cuyos padres contestan

Variables		n	CDDUX total	Tener EC	Comunicación	Dieta
GENERO	Niño	172	54,85(11,51)	51,74(12,31)	68,33 (14,90)	49,67(14,57)
	Niña	256	54,80(12,82)	48,44(12,63)	70,42 (16,10)	50,18(16,49)
			0,97	0, 01	0,18	0,74
EDAD AL DIAGNÓSTICO	<2	259	55,98(12,26)	50,68(12,68)	71,17 (16,02)	51,03 (15,75)
	3-7	93	54,07(11,63)	48,89(12,21)	67,96(14,98)	49,71 (15,00)
	>7	76	51,82 (12,79)	47,72 (12,60)	66,34(14,35)	46,71 (16,26)
p		428	0,03	0,15	0,02	0,11
TIEMPO DE EVOLUCIÓN ENFERMEDAD	=< 4	80	52,08(12,57)	47,00(13,03)	66,92 (13,85)	47,21 (15,78)
	5 - 8	144	54,05 (11,68)	48,15(11,73)	69,54 (15,06)	49,26 (15,60)
	>8	204	56,45(12,37)	51,99 (12,68)	70,65 (16,63)	51,57(15,69)
p		428	0,02	0,00	0,19	0,09
FORMAS CLÍNICAS	Clásica	263	56,31 (12,46)	50,87 (12,68)	70,57 (16,16)	51,90 (16,00)
	No clásica	160	52,39 (11,66)	48,13 (12,37)	67,92 (14,75)	46,75 (14,78)
	Cribado	3	51,11 (13,98)	40,00 (6,67)	66,67 (17,64)	48,89 (16,44)
	Dermatitis herpetiforme	2	60,00 (16,50)	50,00 (14,14)	76,67 (4,71)	56,67 (23,57)
p		428	0,01	0,09	0,34	0,01
ADHERENCIA A LA DIETA	Siempre	414	55,14 (12,24)	49,81 (12,63)	69,95 (15,65)	50,41 (15,62)
	Mayoría	13	46,67 (9,50)	49,74 (11,42)	60,00 (10,18)	38,46 (13,38)
	Algunas	1	28,33	33,33	40,00	20,00
P		428	<0,01*	0,43	0,01*	<0,01*
DIFICULTADES CON LA DIETA	No	380	55,74(12,25)	50,32 (12,48)	70,25 (15,61)	51,19(15,63)
	Económicas	4	47,92 (4,59)	45,00 (11,39)	66,67 (16,33)	40,00 (5,44)
	Sociales	12	43,06 (8,76)	45,00 (14,25)	58,33 (13,37)	34,44 ,(10,86)
	Inseguridad al comer fuera	32	49,27 (10,88)	45,63 (12,80)	66,25 (15,33)	42,60 (14,03)
P		428	<0,001*	0,09	0,04*	<0,001*

SINTOMAS TRANSGRESION	**SI**	**150**	**55,19(13,08)**	**48,09(12,59)**	**70,71 (16,80)**	**50,98(16,39)**
	NO	**278**	**54,63(11,88)**	**50,67(12,53)**	**68,97 (14,98)**	**49,44(15,36)**
			0,65	**0,04**	**0,27**	**0,33**
NIVEL ESTUDIOS PADRE						
	Primarios	**74**	**56,55(13,70)**	**51,17(14,48)**	**73,87(15,12)**	**50,59 (17,33)**
	Secundarios	**156**	**54,40(13,03)**	**50,13(12,75)**	**67,52(16,40)**	**49,98 (16,98)**
	Universitarios	**197**	**54,42(11,07)**	**48,97(11,73)**	**69,51(14,95)**	**49,61(13,97)**
	Total	**427**	**54,79(12,29)**	**49,77(12,61)**	**69,54(15,64)**	**49,91(15,69)**
			0,40	**0,40**	**0,02**	**0,90**
NIVEL ESTUDIOS MADRE						
	Primarios	**59**	**54,27(11,83)**	**48,14(13,90)**	**70,28(14,40)**	**49,32 (15,47)**
	Secundarios	**159**	**56,08(13,06)**	**51,99(14,17)**	**71,40(16,13)**	**50,46(16,28)**
	Universitarios	**210**	**54,03(11,81)**	**48,54(10,62)**	**68,00(15,51)**	**49,79(15,44)**
	Total	**428**	**54,82(12,30)**	**49,77(12,60)**	**69,58(15,64)**	**49,98 (15,73)**
			0,27	**0,02**	**0,11**	**0,87**
CONVIVENCIA	**Madre**	**34**	**51,81(11,79)**	**48,24 (10,77)**	**64,71(13,49)**	**47,16(15,68)**
	OtrosFamilia	**1**	**58,33(-)**	**33,33(-)**	**100,00(-)**	**50,00 (-)**
	Padre	**1**	**56,67(-)**	**53,33(-)**	**60,00(-)**	**56,67(-)**
	Pad/Mad+ pa	**9**	**47,78(8,86)**	**45,19(12,37)**	**55,56(16,33)**	**45,19(11,92)**
	Ambos padres	**383**	**55,24(12,38)**	**50,04(12,75)**	**70,29(15,57)**	**50,32(15,84)**
	Total	**428**	**54,82(12,30)**	**49,77(12,60)**	**69,58(15,64)**	**49,98(15,73)**
			0,24	**0,46**	**<0,001***	**0,68**

*** Diferencias significativas y relevantes.**

Tabla 13. Variables no relacionadas con la CVRS de los 428 niños cuyos padres contestan

Variables		n	CDDUX global	Tener EC	Comunicación	Dieta
EDAD AL RELLENAR ENCUESTA	8-11	173	55,17(12,55)	48,29(12,05)	71,29(15,72)	50,56(16,43)
	12-15	200	54,43(12,29)	50,67(13,30)	68,53(15,32)	49,27(15,19)
	16-18	55	55,15(11,69)	51,15(11,34)	68,00(16,35)	50,73(15,55)
p			0, 82	0, 13	0,17	0,68
ANTEC. FAMILIARES	NO	340	55,02(12,22)	49,98(12,66)	69,06 (15,52)	50,52(15,65)
	1º grado	20	52,58(11,32)	47,33(12,96)	71,00(16,23)	46,00(12,78)
	2º grado	68	54,51(13,05)	49,41(12,26)	71,76(16,13)	48,43(16,81)
			0,673	0,639	0,394	0,311
ENF.ASOCIADAS	NO	374	54,73(12,09)	49,69(12,40)	69,48(15,31)	49,87(15,64)
	SI	54	55,46(13,73)	50,24(13,99)	70,24(17,93)	50,67(16,43)
P			0,684	0,765	0,738	0,726
SEGUIMIENTO.ENF.	Nunca	9	51,67(11,27)	45,93(12,67)	64,44 (21,86)	48,15(12,26)
	Ocasional	5	53,33(15,46)	49,33(12,11)	61,33 (29,21)	51,33(13,66)
	3 meses	7	52,86(12,50)	42,86(17,15)	71,43 (13,17)	48,57(12,74)
	6 meses	49	50,92(12,01)	47,76(11,81)	64,63(15,76)	45,65(14,97)
	12 meses	306	55,87(12,24)	50,44(12,29)	70,63 (14,95)	51,21(15,99)
	24 meses	52	53,30(12,29)	49,36(13,86)	69,49(16,56)	47,18(15,42)
P			0,12	0,40	0,12	0,19
PROFESION MADRE	Ama d casa	61	57,81(12,75)	51,80(13,79)	73,33(15,44)	53,06(16,36)
	Desemple.	34	53,92(11,33)	46,67(10,64)	70,20(15,85)	49,41(16,48)
	Empresaria	41	53,21(13,07)	46,99(14,37)	68,78(20,41)	48,54(14,76)
	Funcionaria	88	55,28 (11,04)	49,39 (11,94)	69,70 (15,36)	51,02 (15,00)
	Trabajo c.ajena	204	54,21(12,36)	50,39(12,35)	68,46(14,65)	48,98(15,73)
P			0,27	0,18	0,32	0,42

PROFESION PADRE	**Ama d casa**	**61**	**54,72(10,77)**	**51,11(6,89)**	**62,22(24,83)**	**52,78(12,55)**
	Desemple	**34**	**51,52(13,05)**	**46,67(10,64)**	**69,86(16,31)**	**44,78(16,08)**
	Empresaria	**41**	**56,41(12,51)**	**50,43(12,60)**	**70,26(16,00)**	**52,48(15,61)**
	Funcionaria	**88**	**56,21(12,91)**	**50,00(11,63)**	**70,43(17,44)**	**52,20(15,89)**
	Trabajo c.ajena	**204**	**54,31(12,04)**	**49,76(13,10)**	**69,32(14,85)**	**49,09(15,67)**
P			**0,38**	**0,79**	**0,79**	**0,15**
¿QUIÉN CONTESTA?	**Padre**	**68**	**54,95(13,21)**	**50,98(13,95)**	**69,22(15,24)**	**49,80(16,63)**
	Madre	**318**	**54,79(12,51**	**49,14(12,45)**	**69,94(15,98)**	**50,04(16,19)**
	Ambos	**1**	**58,33(-)**	**60,00(-)**	**66,67(-)**	**53,33(-)**
p			**0,95**	**0,39**	**0,92**	**0,97**

Tabla 14. Resumen de variables analizadas y su relación con la CVRS (análisis univariable)

Dimension	Género	Edad encuesta	Edad dco	T evol enf	Formas clínicas	Enferm asoc	AF	seguim.	Adherencia dieta	Dificultade dieta	Síntoma Transgresi	Quien contesta de padres	Estudios padre	Estudio madre	Convivenci	Profesion padre	Profesión madre
Total			**0,03**	**0,02**	**0,02**				**< 0,01***	**< 0,001***							
Tener EC	**0,01**			**< 0,001**							**0,04**			**0,02**			
Comunicac			**0,02**						**0,01***	**0,04***			**0,02**		**<0,001**		
Dieta					**0,02**				**< 0,01***	**< 0,001***							

2.2.2.2. Modelo de regresión lineal múltiple con el cuestionario CDDUX

Se aplicaron modelos de regresión múltiple con el fin de identificar las variables independientes (demográficas y clínicas) que pudieran influir en la CVRS. Se incluyeron en el modelo aquellas variables con significación estadística en el análisis univariable (p<0,05). Los resultados se pueden ver en la tabla 9.

En la puntuación total, las variables asociadas con una disminución de la CVRS fueron la **forma no clásica de presentación** (-3,71; IC 95% -6,44; -0,98; p =0,008) y **tener dificultades para realizar la dieta de tipo económico o social** (-6,69; IC 95%-10,59; -2,78; p=0,001). La **adherencia al tratamiento** se asoció con un aumento en la puntuación de la CVRS que no alcanzó el nivel de significación (6,04; IC 95% -0,62; 12,70; p=0,075).

***En la dimensión tener CD*, el menor tiempo de evolución de la enfermedad** (< 4 años) (-4,70; IC 95% -7,91; -1,48; p=0,004), **tener dificultades con la dieta por motivos económicos y sociales** (-4,55; IC 95% -8,44;-0,67; p=0,022) y **tener síntomas con las transgresiones** (-2,70, IC 95% -5,16;-0,25; p=0,031) se asociaron con una peor CVRS. Mientras que el **tener la madre estudios universitarios** (4,385, IC 2,137-6,632;p<0,001) se asoció con tener mejor CVRS.

*En la dimensión comunicación***,** los niños con **menor edad al diagnóstico** (<2 años) (3,87; IC95% 0,87; 6,87; p=0,012), aquellos con **buena adherencia a la dieta** (10,96; IC 95% 2,71; 19,21; p=0,009) obtuvieron las mejores puntuaciones medias de CVRS. Mientras que los que presentaban di**ficultades económicas y sociales** (-5,813, IC 95% -10,728;-0,898; p=0,021) y los que tenía e**studios universitarios el padre** (-3,982, IC 95% -6,847;-1,118;p=0,007) obtuvieron las peores puntuaciones medias de CVRS.

***En la dimensión dieta*,** las peores puntuaciones se observaron en los niños con **dificultades económicas y sociales** (-8,83; IC 95% -13,82; -3,84; p = 0,001) y en la **presentación no clásica de la enfermedad** (-4,50; IC 95% -7,99;

-1,02; p<0,001). Por el contrario, las mejores puntuaciones se observaron en pacientes con **adherencia al tratamiento** (8,36; IC 95% -13,82; -3,84; p=0,001).

En resumen, las principales variables que se relacionaron de forma independiente con tener una peor CVRS fueron **la forma no clásica de EC**, **tener dificultades con la dieta económicas o sociales y tener < 4 años de evolución de la enfermedad.** Mientras que se asoció con una mejor CVRS el diagnóstico a edad < 2 años y la adherencia al tratamiento.

Tabla 15. Modelo de regresión lineal múltiple. Cuestionario CDDUX

					IC para B al 95%	
		Beta	EE	p		
		50,723	3,716	0,000	43,418	58,028
		50,503	3,414	0,000	43,792	57,213
PUNTUACION TOTAL	Formas no clásicas vs resto	-3,706	1,389	0,008	-6,437	-0,975
	Adherencia si vs no	6,039	3,388	0,075	-0,620	12,697
	Dificultad económic /sociales vs resto	-6,688	1,986	0,001	-10,593	-2,784
	Variable dependiente: CDUX (Puntuación total)					
TENER EC		53,337	0,985	0,000	51,400	55,273
	T evolución <4 vs >8	-4,694	1,636	0,004	-7,910	-1,479
	4-8 vs >8	-3,795	1,342	0,005	-6,433	-1,156
	Dificultades económ /sociales Si/ no	-4,554	1,976	0,022	-8,439	-0,670
	Síntomas transgre si vs nc	-2,704	1,251	0,031	-5,163	-0,246
	Ns estudios madre Universit/ resto	4,385	1,145	<0,001	2,137	6,632
	Variable dependiente: Tener EC					
COMUNICACIÓN		56,635	4,195	0,000	48,390	64,879
	Edad al dco < 2 años vs el resto	3,873	1,527	0,012	0,872	6,875
	Adherencia si vs no	10,959	4,197	0,009	2,710	19,209
	Dificultad ecónomic/ Sociales vs resto	-5,813	2,503	0,021	-10,728	-0,898
	N.estudios padre Universit/ resto	-3,982	1,459	0,007	-6,847	-1,118
	Variable dependiente: Comunicación					
DIETA		43,81	4,36	0,000	35,23	52,37
	Forma no clásica vs resto	-4,50	1,77	0,011	-7,99	-1,02
	Adherencia si / no	8,36	4,32	0,054	-0,13	16,87
	Dificultades económica sociales vs resto	-8,83	2,53	0,001	-13,82	-3,84
	Variable dependiente: dieta					

3.- CUESTIONARIO KIDSCREEN

3.1.-Evaluación de la CVRS utilizando el cuestionario Kidscreen.

Contestaron el 2º cuestionario (kidscreen) 255 niños, el 64% (n = 163) eran niñas, y de ellas el 47,5% tenían entre 12-15 años. De los otros 179 niños tenemos información a través de las contestaciones de sus padres, siendo el 50,2% niñas (n=106) y el 40,8% niños (n=73) **Tabla 16.**

Hubo 46 niños, de los 480 que contestaron el CDDUX, que no contestaron el Kidscreen. De ellos 27 (58,7%) eran niños. Por grupos de edad: 21 (45,7%) tenían entre 8-11 años, 19 (41,3%) entre 12-15 años y 6 (13%) entre 16-18 años.

Tabla 16. Datos de los 434 niños que contestaron el cuestionario Kidscreen por género y grupos de edad.

	1.- N=255			2.- n = 179			3. N= 434		
	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL	Niños N(%)	Niñas N(%)	TOTAL
8-11	30 (32,)	52 (31,9)	82 (32,2)	37 (50,7)	48 (45,3)	85(47,5)	67(40,6)	100 (37,2)	167 (38,5)
12-15	48 (52,)	83 (50,9)	131 (51,4)	28 (38,5)	47 (44,3)	75 (41,9)	76(46,1)	130(48,3)	206 (47,5)
16-18	14 (15,)	28 (17,2)	42 (16,5)	8 (10,8)	11 (10,4)	19 (10,6)	22(13,4)	39(14,5)	61 (14,1)
TOTAL	92 (100)	163 (100)	255	73 (100)	106 (100)	179	165 (100)	269 (100)	434

1.- Niños que contestaron solo ellos el cuestionario.
2.- Niños que contestaron solo sus padres el cuestionario.
3.- Respuestas totales de niños 434. Fueron contestadas solo por el niño 255 y solo los padres 179.

3.1.1.- Respuesta a la primera pregunta del cuestionario: ¿En general cómo diría que es su salud?

Los niños (n =255) opinaban que su estado de salud era: “excelente” en 85 (33,3%), “muy bueno” en122 (47,8%), “buena” en 43 (16,9%) y “regular” en 5 (2%). Los padres (n=387) opinaban que el estado de salud de sus hijos era: “excelente” en 120 (31,0%), “muy bueno” en 162 (41,9%), “bueno” en 93 (24%) y “regular” en 12 (3,1%). Mientras que Ninguno de los niños ni de los padres pensaba que su salud era “mala”. No hubo diferencias en la comparación independiente de respuestas de niños y padres (p=0,112).

En la comparación emparejada, la proporción de acuerdo entre las contestaciones de niños y padres sobre su estado de salud fue del 54,8%: 0,5% para la respuesta “regular”, 9,45% para la respuesta “buena”, 25,37% para la respuesta “muy buena” y 19,40% para la respuesta “excelente”. Al calcular la concordancia en las respuestas emparejadas, el índice de kappa ponderado fue de 0,42 (0,29-0,54), que indica una concordancia moderada entre las respuestas de cada niño con su padre ya que, según acuerdo internacional, se considera un índice de concordancia kappa moderado cuando sus valores se encuentran entre 0,40-0,60.

3.1.2.- Respuesta a las dimensiones del cuestionario.

En los niños (n=255) se observó que las puntuaciones más altas correspondían a las dimensiones aceptación social 91,92 (DE 11,82) y estado de ánimo 83,72 (DE 13,72), seguidas de las dimensiones bienestar psicológico 70,57 (DE 9,11), bienestar físico 65,71(DE 8,37), autopercepción 58,04 (DE 10,42), entorno escolar 58,07 (DE 5,51), relaciones con los padres 50,07 (5,60) y recursos económicos 48,06 (DE 8,79). Las puntuaciones más bajas se obtuvieron en las dimensiones autonomía 39,12 (DE 14,83) y en la de amigos y apoyo social 32,18 (DE 11,91).

En los padres (n=387) las puntuaciones más altas se observaron en aceptación social 88,75 (DE 12,95) y estado de ánimo 84,55 (DE 11,74), seguidas de las dimensiones de bienestar psicológico 68,91 (DE 8,92), bienestar físico

64,25 (DE 8,26), autopercepción 58,04 (DE 8,74), entorno escolar 56,67 (DE 4,64), relación con los padres 49,10 (DE 4,38) y en recursos económicos 47,84 (DE 7,09). Las puntuaciones más bajas se obtuvieron en las dimensiones de autonomía 38,58 (DE 11,75) y relación con los amigos y apoyo social 37 (DE 11,91).

Al comparar las respuestas independientes de los 255 niños y los 387 padres **(tabla 17),** se observó que el orden de puntuaciones era similar en padres e hijos. Se encontraron diferencias significativas en 6 de las dimensiones. Las puntuaciones medias de los niños fueron mayores en 5 de ellas: aceptación social (p=0,001), bienestar psicológico (p=0,023), bienestar físico (p=0,029), entorno escolar (p =0,001) y relaciones con padres (p =0,021), con diferencia máxima de 3,17 puntos en la dimensión de aceptación social. Sólo en la dimensión relación con los amigos y apoyo social las puntuaciones de los padres fueron significativamente más altas que la de los niños con una diferencia máxima de 4,82 puntos.

En la figura 4 se muestran las puntuaciones medias de CVRS en niños y padres que contestaron el cuestionario Kidscreen.

Tabla 17. Comparación independiente de las puntuaciones medias de niños y padres.

		N	MEDIA	DE	IC AL 95%		P
Aceptación social	Niños	255	91,92	11,82	1,19	5,15	0,001
	Padres	387	88,75	12,95	1,22	5,12	
Estado de ánimo	Niños	255	83,72	13,72	-2,82	1,16	0,427
	Padres	386	84,55	11,74	-2,89	1,22	
Bienestar psicológico	Niños	255	70,57	9,11	0,23	3,08	0,023
	Padres	387	68,91	8,92	0,22	3,09	
Bienestar físico	Niños	255	65,71	8,37	0,15	2,78	0,029
	Padres	387	64,25	8,26	0,14	2,78	
Autopercepción	Niños	255	58,04	10,42	-1,50	1,49	0,998
	Padres	386	58,04	8,74	-1,55	1,55	
Entorno escolar	Niños	255	58,07	5,51	0,61	2,19	0,001
	Padres	387	56,67	4,64	0,58	2,22	
Relación con padres	Niños	254	50,07	5,60	0,18	1,74	0,021
	Padres	387	49,10	4,38	0,14	1,78	
Recursos económicos	Niños	254	48,06	8,79	-1,02	1,46	0,743
	Padres	386	47,84	7,09	-1,08	1,51	
Autonomía	Niños	255	39,12	14,83	-1,53	2,61	0,627
	Padres	387	38,58	11,75	-1,63	2,71	
Relación con amigos	Niños	255	32,18	11,91	-6,71	-2,93	0,000
	Padres	387	37,00	11,91	-6,71	-2,93	

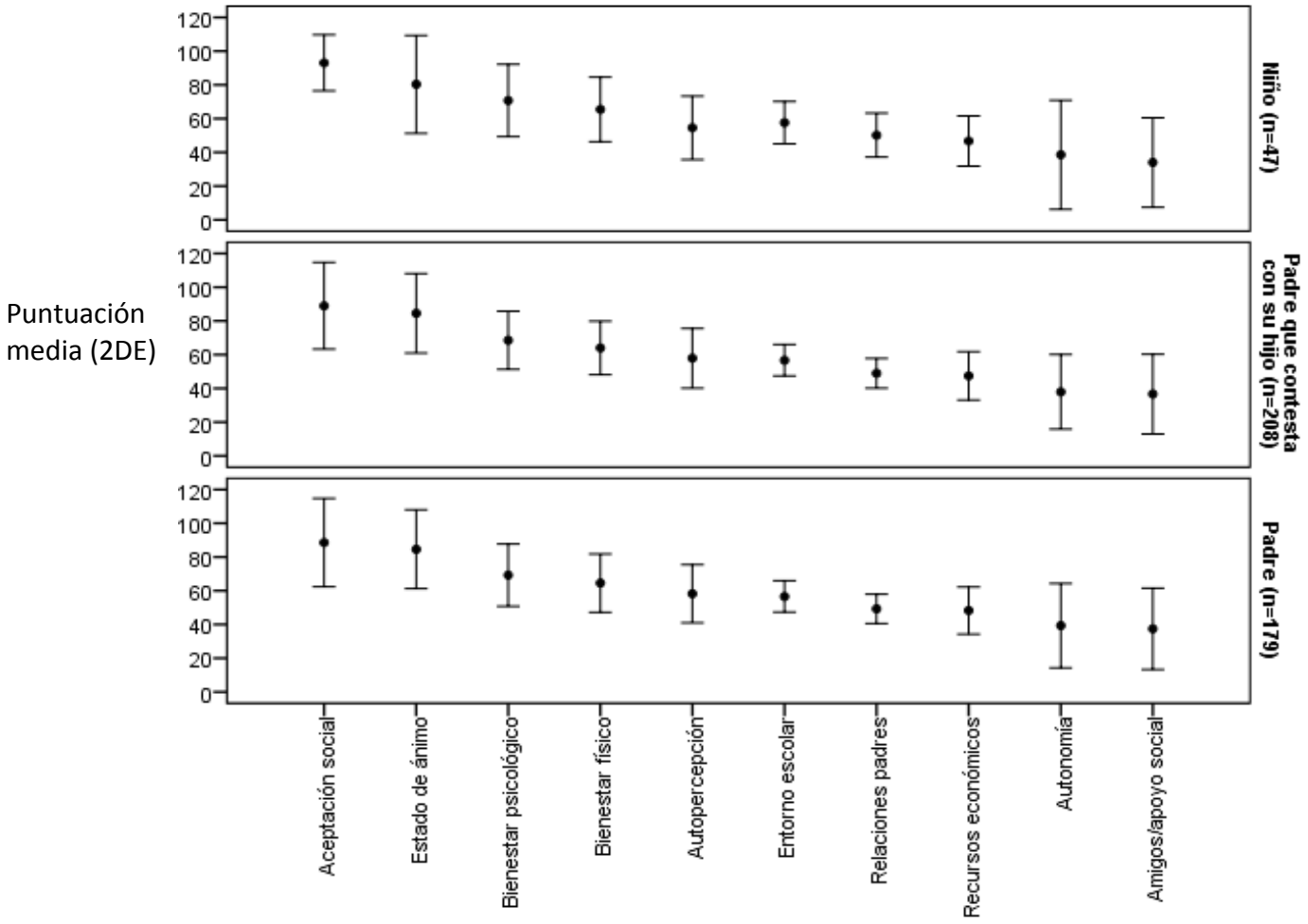

Figura 4. Puntuaciones medias de CVRS en los 434 niños que contestaron el cuestionario Kidscreen

Niño= contestaciones solo de niños =47.
Ambos= contestaciones de los 208 padres que contestaron ellos y sus hijos.
Solo padres=contestaciones de los 179 padres que contestaron solo ellos.

En la comparación emparejada de las respuestas de los 208 niños y padres, las puntuaciones medias de las distintas dimensiones fueron muy similares a las obtenidas en la comparación independiente **(Tabla 18).** Se encontraron diferencias significativas en 7 dimensiones: aceptación social (p=0,017), bienestar físico (p=0,002), bienestar psicológico (p=0,002), entorno escolar (p=0,001), relación con los padres (p =0,016), autonomía (p=0,041), amigos y apoyo social (p <0,001), puntuando mejor los niños en 6 de ellas. La diferencia máxima fue de 2,33 puntos en la dimensión aceptación social. En la única escala en la que puntuaron mejor los padres, igual que ocurrió en la comparación independiente, fue en la de amigos y apoyo social (<0,001) con una diferencia de 4,76 puntos. Solo se observaron diferencias respecto a la comparación independiente en la dimensión autonomía; en la comparación emparejada las puntuaciones fueron significativamente mayores en los niños, mientras que en la independiente no hubo diferencias.No se encontraron diferencias en ninguna de las dimensiones, en las contestaciones de los padres en función de si contestaban ellos solos o si lo hacían también sus hijos, como puede verse en la **tabla 19.**

Tabla 18. Comparación emparejada de la media de las diferencias de niños y padre (n=208)

		M	DE	MED DIF	IC 95%		P
Aceptación social	Niños	91,48	12,64	2,32	0,41	4,22	0,017
	Padres	89,15	12,94				
Estado ánimo	Niños	84,26	13,64	-0,32	-1,95	1,29	0,692
	Padres	84,59	11,81				
Bienestar psicolog	Niños	70,57	8,68				
	Padres	68,63	8,65	1,94	0,718	3,162	0,002
Bienestar físico	Niños	65,81	8,05				
	Padres	64,08	7,89	1,73	0,637	2,825	0,002
Autopercepción	Niños	58,83	10,5				
	Padres	57,97	8,86	0,85	-0,41	2,12	0,186
Entorno escolar	Niños	58,08	5,38				
	Padres	56,75	4,66	1,32	0,54	2,11	0,001
Relación con padre	Niños	50,07	5,36				
	Padres	48,96	4,42	1,11	0,2	2,01	0,016
Recursos económi	Niños	48,26	9,07				
	Padres	47,5	7,18	0,76	-0,69	2,21	0,302
Autonomía	Niños	39,62	14,68				
	Padres	37,81	10,93	1,81	0,07	3,55	0,041
Relación con amig	Niños	31,69	11,72				
	Padres	36,45	11,81	-4,75	-6,43	-3,08	<0,001

Tabla 19. Comparación de las puntuaciones medias de los padres que contestan junto con sus hijos (n=208) frente a los que contestan los padres solos (n= 179)

		N	Media	DE	IC al 95%		P
Aceptación social	**Padre+ hijo**	**208**	**88,98**	**12,88**	**1,19**	**5,15**	**0,703**
	Padre	**179**	**88,48**	**13,06**	**1,22**	**5,12**	
Estado ánimo	**Padre+hijo**	**208**	**84,51**	**11,81**	**-2,82**	**1,16**	**0,945**
	Padre	**179**	**84,59**	**11,67**	**-2,89**	**1,22**	
Bienestar psicologico	**Padre+hijo**	**208**	**68,55**	**8,63**	**0,23**	**3,08**	**0,390**
	Padres	**179**	**69,33**	**9,23**	**0,22**	**3,09**	
Bienestar físico	**Padre+hijo**	**208**	**63,98**	**7,90**	**0,15**	**2,78**	**0,495**
	Padres	**179**	**64,55**	**8,65**	**0,14**	**2,78**	
Autopercepción	**Padre+hijo**	**208**	**57,87**	**8,86**	**-1,50**	**1,49**	**0,687**
	Padres	**179**	**58,23**	**8,60**	**-1,55**	**1,55**	
Entorno escolar	**Padre+hijo**	**208**	**56,69**	**4,64**	**0,61**	**2,19**	**0,884**
	Padres	**179**	**56,62**	**4,64**	**0,58**	**2,22**	
Relación con padres	**Padre+hijo**	**208**	**48,96**	**4,40**	**0,18**	**1,74**	**0,517**
	Padres	**179**	**49,25**	**4,35**	**0,14**	**1,78**	
Recursos económicos	**Padre+hijo**	**208**	**47,47**	**7,16**	**-1,02**	**1,46**	**0,272**
	Padres	**179**	**48,26**	**7,00**	**-1,08**	**1,51**	
Autonomía	**Padre+hijo**	**208**	**37,97**	**11,06**	**-1,53**	**2,61**	**0,272**
	Padres	**179**	**39,28**	**12,49**	**-1,63**	**2,71**	
Relación con amigos	**Padre+hijo**	**208**	**36,65**	**11,82**	**-6,71**	**2,73**	**0,534**
	Padres	**179**	**37,40**	**12,03**	**-6,71**	**2,73**	

3.1.3.- Estudio de las variables relacionadas con la CVRS al utilizar el cuestionario Kidscreen

Para el estudio de estas variables se incluyeron las respuestas de los 387 padres cuyas encuestas incluían todos los datos clínicos, con el fin de obtener el mayor número de datos posibles**.**

3.1.3.1. Análisis univariable.

Las variables que se relacionaron con la CVRS se exponen a continuación.

- **Género: (tabla 20)**

Se encontraron diferencias en las puntuaciones medias de CVRS de los niños según el género en 3 dimensiones: bienestar psicológico (<0,001), bienestar

físico (<0,001) y autopercepción (p<0,001). En las 3 puntuaron mejor los niños, aunque no se encontraron diferencias relevantes entre las puntuaciones, ya que la diferencia máxima fue de 2,96 puntos en bienestar psicológico.

Tabla 20.- Puntuaciones medias de Kidscreen en niños según el género.

		N	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	Niño	148	87,48	13,84	85,23	89,73	
	Niña	239	89,54	12,33	87,97	91,11	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,13
Estado de ánimo	Niño	148	83,67	11,39	81,82	85,52	
	Niña	239	85,10	11,94	83,58	86,63	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,24
Bienestar psicológico	Niño	148	70,74	8,89	69,30	72,19	
	Niña	239	67,78	8,76	66,67	68,90	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,00
Bienestar físico	Niño	148	65,86	8,15	64,54	67,19	
	Niña	239	63,25	8,18	62,20	64,29	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,00
Entorno escolar	Niño	148	57,16	4,57	56,42	57,91	
	Niña	239	56,36	4,66	55,77	56,95	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,10
Autopercepción	Niño	148	59,76	8,07	58,45	61,07	
	Niña	239	56,97	8,98	55,83	58,12	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,00
Relaciones con Padr	Niño	148	49,21	4,44	48,49	49,93	
	Niña	239	49,04	4,35	48,48	49,59	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,70
Recursos económico	Niño	148	47,93	6,93	46,80	49,05	
	Niña	239	47,79	7,21	46,87	48,71	
	Total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,85
Autonomía	Niño	148	37,65	10,98	35,86	39,43	
	Niña	239	39,16	12,19	37,61	40,72	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,22
Relación con amigos	Niño	148	36,53	11,96	34,59	38,47	
	Niña	239	37,29	11,90	35,78	38,81	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,54

- **Edad al rellenar la encuesta (tabla 21)**

Se encontraron diferencias en las puntuaciones medias de CVRS en 5 dimensiones: estado de ánimo (p=0,01) y bienestar psicológico, bienestar físico, entorno escolar y autopercepción (p<0,001). En todas ellas, las puntuaciones fueron mejores en los niños de menor edad (8-11 años) y peores en el grupo de mayor edad (16-18 años).

Tabla 21. Puntuaciones medias de Kidscreen en niños según edad al contestar la encuesta.

					IC al 95%		
		N	Media	Desviación están			p
Aceptación social	8-11	155	89,63	12,14	87,71	91,56	
	12-15	182	87,55	13,49	85,57	89,52	
	16-18	50	90,40	13,28	86,63	94,17	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,21
estado de ánimo	8-11	155	86,56	10,89	84,83	88,29	
	12-15	182	83,64	12,00	81,89	85,40	
	16-18	50	81,57	12,52	77,98	85,17	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,01
Bienestar psicológico	8-11	155	70,74	8,52	69,39	72,09	
	12-15	182	68,60	8,53	67,35	69,85	
	16-18	50	64,40	9,88	61,59	67,21	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,00
Bienestar físico	8-11	155	65,78	8,07	64,50	67,06	
	12-15	182	64,02	7,95	62,86	65,18	
	16-18	50	60,32	8,70	57,85	62,79	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,00
Entorno escolar	8-11	155	58,00	4,41	57,30	58,70	
	12-15	182	56,15	4,62	55,48	56,83	
	16-18	50	54,40	4,23	53,20	55,60	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,00
Autopercepción	8-11	155	60,18	8,50	58,83	61,53	
	12-15	182	57,21	8,32	55,99	58,43	
	16-18	50	54,37	9,41	51,66	57,07	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,00
Relación con padres	8-11	155	49,51	4,43	48,80	50,21	
	12-15	182	48,92	4,30	48,29	49,55	
	16-18	50	48,53	4,48	47,26	49,81	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,29
Recursos Económicos	8-11	155	48,17	7,15	47,04	49,31	
	12-15	182	47,29	7,14	46,25	48,33	
	16-18	50	48,84	6,72	46,91	50,77	
	Total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,30
Autonomía	8-11	155	38,37	11,40	36,56	40,18	
	12-15	182	38,73	12,15	36,95	40,50	
	16-18	50	38,72	11,58	35,43	42,01	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,96
Relación con amigos	8-11	155	35,53	11,39	33,72	37,33	
	12-15	182	38,08	12,50	36,25	39,91	
	16-18	50	37,67	10,99	34,54	40,79	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,13

- **Edad al diagnóstico (tabla 22)**

Solo se encontraron diferencias en las puntuaciones medias de CVRS en 2 dimensiones: bienestar psicológico (<0,001) y bienestar físico (<0,001). En ambas se obtuvieron las peores puntuaciones en los niños de mayor edad al diagnóstico (> 7 años) y las mejores en los de 3-7 años. La diferencia máxima de puntuaciones fue de 5,18 en la escala de bienestar psicológico.

Tabla 22. Puntuaciones medias de CVRS en niños que contestan Kidscreen según la edad al diagnóstico

		N	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	=< 2	241	88,74	12,95	87,10	90,38	
	3-7	78	88,72	13,60	85,65	91,79	
	>7	68	88,82	12,38	85,83	91,82	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	1,00
Estado de ánimo	=< 2	241	85,30	11,43	83,85	86,75	
	3-7	78	84,27	12,01	81,54	86,99	
	>7	68	82,23	12,36	79,24	85,22	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,16
Bienestar psicológico	=< 2	241	69,34	9,04	68,19	70,48	
	3-7	78	70,77	7,69	69,04	72,50	
	>7	68	65,29	8,93	63,13	67,46	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,00
Bienestar físico	=< 2	241	64,83	8,24	63,78	65,88	
	3-7	78	65,59	7,22	63,96	67,22	
	>7	68	60,65	8,54	58,58	62,71	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,00
Entorno escolar	=< 2	241	56,56	4,72	55,96	57,16	
	3-7	78	57,52	4,41	56,53	58,52	
	>7	68	56,08	4,53	54,98	57,18	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,14
Autopercepción	=< 2	241	57,78	8,65	56,68	58,87	
	3-7	78	59,53	8,83	57,53	61,54	
	>7	68	57,29	8,89	55,14	59,45	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,23
Relación con padres	=< 2	241	49,18	4,35	48,63	49,74	
	3-7	78	49,62	4,77	48,54	50,69	
	>7	68	48,24	3,93	47,29	49,19	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,15
Recursos económicos	=< 2	241	48,08	7,18	47,17	48,99	
	3-7	78	47,79	7,12	46,18	49,41	
	>7	68	47,06	6,80	45,41	48,71	
	Total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,58
Autonomía	=< 2	241	38,85	11,73	37,37	40,34	
	3-7	78	38,15	10,67	35,75	40,56	
	>7	68	38,12	13,10	34,95	41,29	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,85
Relación con amigos	=< 2	241	36,68	11,51	35,22	38,14	
	3-7	78	37,56	11,91	34,88	40,25	
	>7	68	37,50	13,36	34,27	40,73	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,79

- **Tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico (Tabla 23)**

Se encontraron diferencias en las puntuaciones medias de CVRS en 4 dimensiones: bienestar psicológico y bienestar físico (p=0,01), entorno escolar (p<0,001) y autopercepción (p<0,001). En las 2 primeras puntuaron peor los niños con menor tiempo de evolución (< 4 años) y en las 2 últimas puntuaron peor los niños con mayor tiempo de evolución (> 8 años). La diferencia máxima de puntuaciones fue de 4,08 en la dimensión bienestar psicológico.

Tabla 23. Puntuaciones medias de CVRS en niños que contestan Kidscreen según el tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico

					IC 95%		P
Aceptación social	=< 4	67	88,86	12,30	85,85	91,86	
	5 - 8	130	88,15	12,92	85,91	90,40	
	>8	190	89,12	13,25	87,23	91,02	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,80
Estado de ánimo	=< 4	67	83,54	11,86	80,65	86,43	
	5 - 8	130	85,01	11,99	82,93	87,09	
	>8	190	84,60	11,56	82,94	86,25	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,70
Bienestar psicológico	=< 4	67	66,57	9,01	64,37	68,77	
	5 - 8	130	70,65	8,15	69,24	72,07	
	>8	190	68,55	9,19	67,24	69,87	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,01
Bienestar físico	=< 4	67	61,79	8,65	59,68	63,90	
	5 - 8	130	65,60	7,61	64,28	66,92	
	>8	190	64,19	8,38	62,99	65,39	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,01
Entorno escolar	=< 4	67	56,62	4,59	55,50	57,74	
	5 - 8	130	57,72	4,60	56,92	58,52	
	>8	190	55,96	4,57	55,31	56,62	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,00
Autopercepción	=< 4	67	59,04	8,59	56,95	61,14	
	5 - 8	130	59,91	8,44	58,44	61,37	
	>8	190	56,40	8,72	55,15	57,65	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,00
Relación Padres	=< 4	67	48,86	4,17	47,84	49,87	
	5 - 8	130	49,56	4,76	48,74	50,39	
	>8	190	48,88	4,17	48,28	49,47	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,34
Recursos económicos	=< 4	67	47,06	7,51	45,23	48,90	
	5 - 8	130	48,92	6,67	47,77	50,08	
	>8	190	47,37	7,18	46,34	48,40	
	Total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,10
Autonomía	=< 4	67	38,39	12,38	35,37	41,41	
	5 - 8	130	39,63	11,50	37,63	41,63	
	>8	190	37,94	11,71	36,26	39,61	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,44
Relación con Amigos	=< 4	67	37,76	12,23	34,78	40,74	
	5 - 8	130	36,90	12,26	34,77	39,03	
	>8	190	36,81	11,60	35,15	38,47	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,85

- **Formas clínicas de presentación de la enfermedad (Tabla 24)**

No se encontraron diferencias en ninguna de las dimensiones según las formas clínicas de presentación.

Tabla 24. Puntuaciones medias de CVRS en niños que contestan Kidscreen según la forma clínica de presentación

		N	media	DS	IC 95%		P
Aceptación social	Clásica	239	89,32	12,80	87,69	90,95	
	No clásica	143	87,51	13,28	85,31	89,70	
	Cribado	3	97,78	3,85	88,22	107,34	
	D. Herpética	2	96,67	4,71	54,31	139,02	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,26
Estado de ánimo	Clásica	238	84,99	12,15	83,44	86,54	
	No clásica	143	83,92	11,08	82,08	85,75	
	Cribado	3	84,76	14,66	48,34	121,18	
	D. Herpética	2	77,14	0,00	77,14	77,14	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,67
Bienestar psicológico	Clásica	239	69,04	9,04	67,89	70,19	
	No clásica	143	68,57	8,81	67,11	70,02	
	Cribado	3	73,33	7,64	54,36	92,31	
	D. Herpética	2	72,50	3,54	40,73	104,27	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,73
Bienestar físico	Clásica	239	64,52	8,27	63,47	65,57	
	No clásica	143	63,66	8,32	62,29	65,04	
	Cribado	3	68,00	4,00	58,06	77,94	
	D. Herpética	2	68,00	5,66	17,18	118,82	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,57
Autopercepción	Clásica	239	58,00	8,79	56,88	59,12	
	No clásica	143	58,18	8,81	56,72	59,64	
	Cribado	3	57,33	2,31	51,60	63,07	
	D.Herpética	2	54,00	2,83	28,59	79,41	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,92
Entorno escolar	Clásica	239	56,43	4,68	55,83	57,03	
	No clásica	143	56,97	4,58	56,21	57,73	
	Cribado	3	58,89	5,09	46,24	71,54	
	D. Herpética	2	60,00	0,00	60,00	60,00	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,40
Relación con Padres	Clásica	239	49,12	4,60	48,54	49,71	
	No clásica	143	49,07	4,00	48,41	49,73	
	Cribado	3	50,00	6,67	33,44	66,56	
	D. Herpética	2	48,33	2,36	27,16	69,51	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,98
Recursos económicos	Clásica	239	48,01	7,22	47,09	48,93	
	No clásica	143	47,60	6,88	46,46	48,74	
	Cribado	3	44,44	3,85	34,88	54,01	
	D. Herpe	2	50,00	14,14	-77,06	177,06	
	Total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,76
Autonomía	Clásica	239	38,33	11,83	36,82	39,83	
	No clásica	143	38,97	11,45	37,07	40,86	
	Cribado	3	50,67	15,14	13,05	88,29	
	D. Herpética	2	24,00	5,66	-26,82	74,82	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,09
Relacion con amigos	Clásica	239	36,60	11,96	35,07	38,12	
	No clásica	143	37,74	11,90	35,77	39,71	
	Cribado	3	36,67	15,28	-1,28	74,61	
	D. Herpetica	2	33,33	4,71	-9,02	75,69	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,79

- **Enfermedades asociadas (tabla 25)**

Solo se encontraron diferencias en 2 dimensiones. En estado de ánimo puntuaron peor los que tenían enfermedades asociadas (p<0,001), y en la dimensión relación con amigos y apoyo social puntuaron peor los que no tenían enfermedades asociadas (p=0,02). La diferencia máxima de puntuaciones medias fue de 5,25 en la escala estado de ánimo.

Tabla 25. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la presencia o no de enfermedades asociadas

		N	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	NO	336	89,23	12,92	-0,21	7,42	0,06
	SI	51	85,62	12,88	-0,26	7,47	
Estado Animo	NO	335	85,25	11,53	1,81	8,68	0,00
	SI	51	80,00	12,16	1,62	8,87	
B. psicológico	NO	336	69,09	8,84	-1,29	3,98	0,32
	SI	51	67,75	9,40	-1,45	4,15	
B. físico	NO	336	64,43	8,22	-1,07	3,81	0,27
	SI	51	63,06	8,49	-1,17	3,91	
Autopercepción	NO	335	58,35	8,69	-0,22	4,93	0,08
	SI	51	56,00	8,84	-0,29	5,00	
Entorno escolar	NO	336	56,54	4,47	-2,35	0,39	0,23
	SI	51	57,52	5,61	-2,62	0,67	
Relación Padres	NO	336	49,14	4,37	-1,05	1,54	0,71
	SI	51	48,89	4,46	-1,09	1,58	
Recursos económicos	NO	335	47,56	6,89	-4,20	-0,02	0,05
	SI	51	49,67	8,14	-4,51	0,29	
Autonomía	NO	336	38,31	11,54	-5,55	1,39	0,24
	SI	51	40,39	13,03	-5,94	1,77	
Relación amigos	NO	336	36,47	11,64	-7,56	-0,55	0,02
	SI	51	40,52	13,14	-7,94	-0,16	

- **Antecedentes familiares de EC (tabla 26)**

No se encontraron diferencias en función de la existencia o no de antecedentes familiares de EC

Tabla 26.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según existencia o no de antecedentes familiares de EC.

		N	MEDIA	DE	IC 95%		P
Aceptación social	No	307	88,64	12,90	87,19	90,09	
	Fam 1º g	17	89,80	14,17	82,52	97,09	
	Fam 2º g	63	88,99	13,07	85,70	92,29	
	total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,93
Estado de Animo	No	306	84,67	11,85	83,34	86,00	
	Fam 1º g	17	83,70	11,05	78,01	89,38	
	Fam 2º g	63	84,22	11,52	81,32	87,12	
	total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,92
B psicológico	No	307	68,71	9,01	67,70	69,72	
	Fam 1º g	17	69,41	7,68	65,46	73,36	
	Fam 2º g	63	69,76	8,86	67,53	71,99	
	total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,39
B fisico	No	307	63,96	8,31	63,03	64,89	
	Fam 1º g	17	65,88	6,80	62,39	69,38	
	Fam 2º g	63	65,21	8,34	63,11	67,31	
	total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,68
Entorno escolar	No	307	56,59	4,60	56,07	57,11	
	Fam 1º g	17	56,08	5,03	53,49	58,67	
	Fam 2º g	63	57,20	4,76	56,00	58,39	
	total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,56
Autopercepción	No	306	58,07	8,48	57,11	59,02	
	Fam 1º g	17	60,47	8,70	56,00	64,95	
	Fam 2º g	63	57,27	9,92	54,77	59,77	
	total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,41
Relación padres	No	307	49,14	4,37	48,65	49,63	
	Fam 1º g	17	47,65	2,57	46,32	48,97	
	Fam 2º g	63	49,31	4,76	48,11	50,51	
	total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,36
Recursos económicos	No	306	47,78	6,96	46,99	48,56	
	Fam 1º g	17	49,02	6,64	45,60	52,43	
	Fam 2º g	63	47,83	7,90	45,84	49,82	
	total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,78
Autonomía	No	307	38,25	11,69	36,94	39,57	
	Fam 1º g	17	40,24	12,45	33,84	46,64	
	Fam 2º g	63	39,75	11,95	36,74	42,76	
	total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,55
Relación amigos	No	307	36,97	11,86	35,64	38,30	
	Fam 1º g	17	32,94	11,11	27,23	38,65	
	Fam 2º g	63	38,25	12,30	35,16	41,35	
	total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,26

- **Adherencia al tratamiento (tabla 27)**

Se encontraron diferencias en 2 dimensiones: estado de ánimo (p=0,04) y aceptación social (p=0,03). En ambos casos la puntuación máxima se obtuvo en los que cumplían la dieta siempre y la mínima en los que solo la cumplían a veces. La diferencia entre el único paciente que sólo cumplía algunas veces la dieta y los que la cumplían siempre fue de 28,98 puntos en el rechazo social y de 27,26 puntos en el estado de ánimo. Mientras que entre los 2 grupos que eran los que la cumplían siempre y los que lo hacían la mayoría de las veces, la m.

Tabla 27.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la adherencia a la dieta

			M	DE	IC 95%		P
Aceptación social	Siempre	374	88,98	12,94	87,67	90,30	
	Mayoría	12	83,89	10,43	77,26	90,51	
	Algunas	1	60,00	.	.	.	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,03
Estado de ánimo	Siempre	374	84,70	11,66	83,52	85,89	
	Mayoría	12	82,14	12,31	74,32	89,97	
	Algunas	1	57,14	.	.	.	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,049
B psicológico	Siempre	374	69,02	8,87	68,12	69,93	
	Mayoría	12	66,67	10,08	60,27	73,07	
	Algunas	1	55,00	.	.	.	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,20
B. fisico	Siempre	374	64,34	8,25	63,50	65,18	
	Mayoría	12	62,33	8,08	57,20	67,47	
	Algunas	1	52,00	.	.	.	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,24
Entorno escolar	Siempre	374	56,62	4,67	56,15	57,10	
	Mayoría	12	58,06	3,88	55,59	60,52	
	Algunas	1	56,67	.	.	.	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,58
Autopercepción	Siempre	374	58,17	8,68	57,28	59,05	
	Mayoría	12	54,33	10,44	47,70	60,97	
	Algunas	1	56,00	.	.	.	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,32
Relación con Padres	Siempre	374	49,06	4,36	48,61	49,50	
	Mayoría	12	50,56	5,09	47,32	53,79	
	Algunas	1	50,00	.	.	.	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,50
Recursos económicos	Siempre	373	47,88	7,10	47,16	48,60	
	Mayoría	12	46,67	7,52	41,89	51,45	
	Algunas	1	46,67	.	.	.	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,83
Autonomia	Siempre	374	38,41	11,72	37,21	39,60	
	Mayoría	12	44,00	12,42	36,11	51,89	
	Algunas	1	40,00	.	.	.	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,27
Relación con amigos	Siempre	374	36,91	11,97	35,69	38,12	
	Mayoría	12	40,28	10,49	33,61	46,94	
	Algunas	1	33,33	.	.	.	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,60

- **Dificultades con la dieta (tabla 28)**

Se encontraron diferencias en 3 dimensiones: estado de ánimo (p=0,01), autopercepción (p 0,001) y recursos económicos (p =0,02).

En la dimensión estado de ánimo las peores puntuaciones se obtuvieron en los niños que presentaban dificultades con la dieta por motivos económicos, seguido de los que tenían inseguridad al comer fuera de casa y de los que tenían dificultades por motivos sociales. La máxima diferencia de puntuaciones se observó entre los que tenían dificultades económicas y los que no tenían dificultades con la dieta (10,250 puntos).

En la dimensión autopercepción, las puntuaciones más bajas se encontraron en los que tenían dificultades de tipo social seguido de los que tenían inseguridad al comer fuera de casa y de los que tenían dificultades por motivos económicos. La diferencia máxima de puntuaciones en esta dimensión se obtuvo entre los que tenían dificultades por motivos sociales y los que no tenían dificultades (7,97 puntos).

En la dimensión recursos económicos puntuaron peor los que tenían inseguridad al comer fuera de casa y los que no tenían dificultades con la dieta, con puntuaciones muy similares. La diferencia máxima de puntuaciones se obtuvo entre los que tenían inseguridad para comer fuera y los que tenían dificultades económicas (11,15 puntos)

Tabla 28.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen dificultades con la dieta

		N	media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	No	346	89,23	12,72	87,88	90,57	
	Económicas	4	81,67	14,78	58,14	105,19	
	social	11	84,85	11,96	76,81	92,88	
	inseguridad	26	85,13	15,58	78,83	91,42	
	total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,20
Estado de ánimo	No	346	85,25	11,50	84,03	86,47	
	Económicas	4	75,00	10,79	57,84	92,16	
	social	11	79,74	10,65	72,59	86,89	
	inseguridad	26	78,79	13,26	73,44	84,15	
	total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,01
B. psicológico	No	346	64,44	8,35	63,56	65,32	
	Económicas	4	64,00	5,66	55,00	73,00	
	social	11	64,73	8,36	59,11	70,34	
	inseguridad	26	61,54	7,07	58,68	64,40	
	total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,54
B fisico	No	346	69,05	8,96	68,10	69,99	
	Económicas	4	70,00	7,07	58,75	81,25	
	social	11	70,00	10,00	63,28	76,72	
	inseguridad	26	66,54	8,22	63,22	69,86	
	total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,39
Entorno escolar	no	346	56,64	4,55	56,16	57,12	
	Económicas	4	53,33	8,16	40,34	66,33	
	social	11	56,67	4,47	53,66	59,67	
	inseguridad	26	57,56	5,30	55,42	59,70	
	total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,39
Autopercepción	no	346	58,52	8,51	57,61	59,42	
	Económicas	4	59,00	8,87	44,89	73,11	
	social	11	50,55	8,63	44,75	56,34	
	inseguridad	26	54,77	9,98	50,74	58,80	
	total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,00
Relaciones padres	no	346	49,08	4,43	48,62	49,55	
	Económicas	4	48,33	4,30	41,49	55,18	
	social	11	49,39	3,60	46,98	51,81	
	inseguridad	26	49,36	4,22	47,66	51,06	
	total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,97
Recursos económicos	no	346	47,73	6,92	47,00	48,46	
	Económicas	4	58,33	12,62	38,25	78,41	
	social	11	49,09	8,04	43,69	54,49	
	inseguridad	26	47,18	7,28	44,24	50,12	
	total	387	47,84	7,09	47,13	48,55	0,02
Autonomía	no	346	38,45	11,80	37,20	39,70	
	Económicas	4	41,00	16,45	14,82	67,18	
	social	11	42,18	13,55	33,08	51,28	
	inseguridad	26	38,46	9,93	34,45	42,47	
	total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,74
Relaciones con amigos	No	346	36,97	12,17	35,68	38,25	
	Económicas	4	37,50	19,12	7,07	67,93	
	social	11	39,70	6,90	35,06	44,34	
	inseguridad	26	36,28	9,01	32,64	39,92	
	total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,88

- **Síntomas con las transgresiones (tabla 29)**

Solo se encontraron diferencias en 2 dimensiones: estado de ánimo (p 0,02) y entorno escolar (p=0,01), con una diferencia máxima de puntuaciones medias de 2,95 y 1,38 puntos, entre los que tenían síntomas y los que no los tenían. En la dimensión estado de ánimo se observaron las peores puntuaciones en los que tenían síntomas con las transgresiones y en la de entorno escolar fueron peores en los que no los tenían.

Tabla 29.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según síntomas con las transgresiones.

		N	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	Sí	140	88,33	13,64	86,05	90,61	
	No	247	88,99	12,57	87,41	90,56	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,63
Estado de animo	Sí	140	82,67	12,39	80,60	84,74	
	No	246	85,62	11,24	84,21	87,03	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,02
B. psicológico	Sí	140	68,43	9,37	66,86	69,99	
	No	247	69,19	8,66	68,11	70,28	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,42
B. físico	Sí	140	63,94	8,72	62,49	65,40	
	No	247	64,42	8,00	63,42	65,42	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,59
	Sí	140	57,55	4,81	56,74	58,35	
Entorno escolar	No	247	56,17	4,48	55,61	56,73	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,01
	Sí	140	57,43	9,45	55,85	59,01	
Autopercepción	No	246	58,39	8,30	57,35	59,43	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,30
Relación Padres	Sí	140	49,10	4,50	48,34	49,85	
	No	247	49,11	4,32	48,57	49,65	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,98
Recursos económicos	Sí	140	48,38	7,12	47,19	49,57	
	No	246	47,53	7,07	46,65	48,42	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,26
Autonomía	Sí	140	38,11	11,49	36,19	40,03	
	No	247	38,85	11,91	37,36	40,34	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,56
Relación Amigos	Sí	140	36,86	12,48	34,77	38,94	
	No	247	37,09	11,60	35,63	38,54	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,86

- **Frecuencia de seguimiento (Tabla 30)**

No se encontraron diferencias en función de la frecuencia de seguimiento de la enfermedad.

Tabla 30.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen según la frecuencia de seguimiento

		N	Media	DS	IC 95%		p
Aceptación social	Nunca	9	85,93	14,70	74,63	97,22	
	Ocasional	4	98,33	3,33	93,03	103,64	
	3 meses	7	87,62	16,52	72,34	102,90	
	6 meses	43	83,88	15,41	79,13	88,62	
	12 meses	277	89,53	12,28	88,08	90,98	
	24 meses	47	88,51	13,31	84,60	92,42	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,08
Estado de ánimo	Nunca	9	81,59	17,09	68,45	94,72	
	Ocasional	4	90,71	7,51	78,76	102,67	
	3 meses	7	84,49	13,79	71,74	97,24	
	6 meses	43	79,93	12,82	75,99	83,88	
	12 meses	277	85,20	11,32	83,86	86,54	
	24 meses	47	85,03	11,42	81,64	88,42	
	Total	387	84,55	11,74	83,38	85,73	0,10
B.psicológico	Nunca	9	68,89	13,64	58,40	79,38	
	Ocasional	4	65,00	10,00	49,09	80,91	
	3 meses	7	69,29	10,18	59,87	78,70	
	6 meses	43	65,35	10,14	62,23	68,47	
	12 meses	277	69,30	8,50	68,29	70,30	
	24 meses	47	70,21	8,47	67,73	72,70	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,10
B.físico	Nunca	9	64,44	12,24	55,04	73,85	
	Ocasional	4	61,00	10,00	45,09	76,91	
	3 meses	7	64,00	10,07	54,69	73,31	
	6 meses	43	61,21	9,46	58,30	64,12	
	12 meses	277	64,53	7,91	63,60	65,47	
	24 meses	47	65,62	7,54	63,40	67,83	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,15
Autopercepción	Nunca	9	59,56	7,33	53,92	65,19	
	Ocasional	4	53,00	7,57	40,95	65,05	
	3 meses	7	62,86	8,86	54,66	71,05	
	6 meses	43	54,88	8,06	52,40	57,37	
	12 meses	277	58,60	8,91	57,55	59,65	
	24 meses	47	57,04	7,93	54,69	59,40	
	Total	387	58,04	8,74	57,17	58,92	0,05
Entorno escolar	Nunca	9	57,04	6,55	52,00	62,07	
	Ocasional	4	54,17	1,67	51,51	56,82	
	3 meses	7	59,05	4,18	55,18	62,91	
	6 meses	43	57,36	4,91	55,85	58,88	
	12 meses	277	56,51	4,58	55,97	57,05	
	24 meses	47	56,74	4,58	55,39	58,08	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,50

Relación con Padres	**Nunca**	**9**	**48,89**	**6,01**	**44,27**	**53,51**	
	Ocasional	**4**	**48,33**	**3,33**	**43,03**	**53,64**	
	3 meses	**7**	**48,57**	**4,66**	**44,26**	**52,88**	
	6 meses	**43**	**48,68**	**3,99**	**47,45**	**49,91**	
	12 meses	**277**	**49,13**	**4,38**	**48,62**	**49,65**	
	24 meses	**47**	**49,50**	**4,56**	**48,17**	**50,84**	
	Total	**387**	**49,10**	**4,38**	**48,67**	**49,54**	**0,86**
Recursos económicos	**Nunca**	**9**	**46,67**	**8,16**	**40,39**	**52,94**	
	Ocasional	**4**	**46,67**	**5,44**	**38,01**	**55,33**	
	3 meses	**7**	**44,76**	**11,36**	**34,25**	**55,27**	
	6 meses	**43**	**47,91**	**6,71**	**45,84**	**49,97**	
	12 meses	**277**	**48,06**	**7,00**	**47,24**	**48,89**	
	24 meses	**47**	**47,25**	**7,41**	**45,04**	**49,45**	
	Total	**387**	**47,84**	**7,09**	**47,13**	**48,55**	**0,81**
Autonomía	**Nunca**	**9**	**44,44**	**13,03**	**34,43**	**54,46**	
	Ocasional	**4**	**38,00**	**16,81**	**11,25**	**64,75**	
	3 meses	**7**	**42,29**	**14,76**	**28,63**	**55,94**	
	6 meses	**43**	**37,58**	**14,53**	**33,11**	**42,05**	
	12 meses	**277**	**38,50**	**11,47**	**37,14**	**39,86**	
	24 meses	**47**	**38,38**	**9,50**	**35,59**	**41,17**	
	Total	**387**	**38,58**	**11,75**	**37,41**	**39,76**	**0,66**
Relación amigos	**Nunca**	**9**	**45,19**	**10,69**	**36,97**	**53,40**	
	Ocasional	**4**	**33,33**	**15,40**	**8,83**	**57,83**	
	3 meses	**7**	**44,76**	**10,86**	**34,72**	**54,81**	
	6 meses	**43**	**36,36**	**13,37**	**32,24**	**40,47**	
	12 meses	**277**	**36,64**	**11,55**	**35,28**	**38,01**	
	24 meses	**47**	**37,30**	**12,29**	**33,70**	**40,91**	
	Total	**387**	**37,00**	**11,91**	**35,81**	**38,19**	**0,16**

- **Cual de los padres contestó la encuesta (Tabla 31)**

Sólo se observaron diferencias significativas en la dimensión de relación con los padres ($p<0,001$). La puntuación media mas alta se encontró en el único caso en el que ambos padres contestaron, con una diferencia de 14,56 puntos respecto a la puntuación de los padres cuando contestaban por separado.

- **Tipo de convivencia (tabla 32)**

No se encontraron diferencias en ninguna de las dimensiones en función de con quien vivía el niño.

- **Nivel de estudios (tablas 33 y 34)**

No hubo según el nivel de estudios del padre**,** pero si las hubo respecto al nivel de estudios de la madre. Se encontraron diferencias en 2 dimensiones, bienestar físico (p 0,04) y bienestar psicológico (p=0,02). Puntuaron mejor las madres que tenían estudios universitarios, con diferencias entre las que tenían estudios universitarios y primarios de 3,91 puntos en bienestar psicológico y de 2,29 puntos en bienestar físico.

- **Actividad profesional de los padres (tablas 35 y 36)**

No se observaron diferencias en función de la actividad profesional de los padres

Tabla 31. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de si contesta madre o padre

		N	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	Padre	68	88,24	13,59	84,95	91,52	
	Madre	318	88,83	12,84	87,41	90,24	
	Ambos	1	100,00	.	.	.	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,65
E. Animo	Padre	68	84,29	12,04	81,37	87,20	
	Madre	317	84,56	11,68	83,27	85,85	
	Ambos	1	100,00	.	.	.	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,41
B. Psicológico	Padre	68	68,38	8,79	66,26	70,51	
	Madre	318	69,06	8,95	68,07	70,04	
	Ambos	1	60,00	.	.	.	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,51
B. físico	Padre	68	63,94	8,28	61,94	65,95	
	Madre	318	64,33	8,27	63,41	65,24	
	Ambos	1	60,00	.	.	.	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,82
Autopercepción	Padre	68	58,41	8,52	56,35	60,48	
	Madre	317	57,93	8,79	56,96	58,90	
	Ambos	1	68,00	.	.	.	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,48
Entorno escolar	Padre	68	56,91	4,62	55,79	58,03	
	Madre	318	56,61	4,66	56,10	57,13	
	Ambos	1	56,67	.	.	.	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,89
Relación Padres	Padre	68	48,77	4,68	47,64	49,91	
	Madre	318	49,13	4,25	48,66	49,60	
	Ambos	1	63,33	.	.	.	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,00
Recursos económic	Padre	68	48,53	6,70	46,91	50,15	
	Madre	317	47,70	7,19	46,90	48,49	
	Ambos	1	46,67	.	.	.	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,67
Autonomia	Padre	68	37,18	10,66	34,60	39,76	
	Madre	318	38,94	11,94	37,63	40,26	
	Ambos	1	20,00	.	.	.	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,15
Relación Amigos	Padre	68	36,57	11,42	33,81	39,33	
	Madre	318	37,15	12,01	35,82	38,47	
	Ambos	1	20,00	.	.	.	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,34

Tabla 32. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de con quién conviven

		N	MEDIA	DS	IC 95%		P
Aceptación.social	Madre	33	86,87	15,14	81,50	92,27	
	Otros Fam miliares	1	86,67	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	81,48	21,54	64,92	98,04	
	Ambos padres	344	89,13	12,44	87,81	90,45	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,04	0,28
Animo	Madre	33	81,64	12,06	77,37	85,92	
	OtrosFamiliares	1	85,71	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	86,67	14,07	75,85	97,48	
	Ambos padres	343	84,77	11,66	83,54	86,01	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,49
B. psicológ	Madre	33	69,24	9,611	65,83	72,65	
	OtrosFamiliares	1	65,00	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	65,00	9,01	58,07	71,93	
	Ambos padres	344	68,99	8,86	68,06	69,94	
	Total	387	68,91	8,98	68,02	69,80	0,57
B. físico	Madre	33	63,88	8,63	60,82	66,94	
	OtrosFamiliares	1	60,00	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	60,89	7,94	54,78	66,99	
	Ambos padres	344	64,38	8,24	63,51	65,26	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,59
Autopercepción	Madre	33	55,88	9,08	52,66	59,10	
	OtrosFamiliares	1	64,00	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	59,11	12,61	49,42	68,80	
	Ambos padres	343	58,20	8,59	57,29	59,12	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,91	0,43
Entorno escolar	Madre	33	57,78	5,25	55,92	59,64	
	OtrosFamiliares	1	60,00	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	53,33	5,77	48,90	57,77	
	Ambos padres	344	56,64	4,52	56,16	57,18	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,07
Relación Padres	Madre	33	49,70	4,88	47,96	51,43	
	OtrosFamiliares	1	43,33	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	49,63	6,33	44,76	54,50	
	Ambos padres	344	49,05	4,27	48,60	49,50	
	Total	387	49,10	4,38	48,66	49,54	0,47
Recursos Económicos	Madre	33	47,27	7,33	44,67	49,87	
	OtrosFamiliares	1	46,67	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	46,67	6,66	41,54	51,79	
	Ambos padres	343	47,93	7,11	47,18	48,68	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,91
Autonomía	Madre	33	41,82	15,00	36,50	47,14	
	OtrosFamiliares	1	28,00	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	36,00	13,85	25,35	46,65	
	Ambos padres	344	38,37	11,33	37,17	39,57	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,28
Relación Amigos	Madre	33	37,4747	13,30806	32,7559	42,1936	
	OtrosFamiliares	1	26,6667	.	.	.	
	PadreMadrePActual	9	33,7037	13,17030	23,5801	43,8273	
	Ambos padres	344	37,0736	11,76774	35,8257	38,3216	
	Total	387	37,0026	11,91153	35,8121	38,1931	0,68

Tabla 33. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función del nivel de estudios del padre

		n	Media	DS	IC 95%		p
Aceptación social	Primarios	68	89,02	14,24	85,57	92,47	
	Secundarios	141	88,65	12,94	86,50	90,81	
	Universitarios	177	88,66	12,52	86,81	90,52	
	Total	386	88,72	12,96	87,43	90,02	0,98
Estado de Animo	Primarios	68	82,77	12,78	79,68	85,87	
	Secundarios	141	84,74	12,52	82,66	86,83	
	Universitar	176	85,00	10,60	83,42	86,58	
	Total	385	84,51	11,73	83,34	85,69	0,40
B psicológico	Primarios	68	63,29	8,23	61,30	65,29	
	Secundarios	141	65,02	8,24	63,65	66,39	
	Universitarios	177	63,98	8,28	62,75	65,21	
	Total	386	64,24	8,26	63,41	65,07	0,42
B. fisico	Primarios	68	67,87	8,82	65,73	70,00	
	Secundarios	141	69,57	8,77	68,11	71,04	
	Universitarios	177	68,79	9,10	67,44	70,13	
	Total	386	68,91	8,93	68,02	69,81	0,31
Autopercepción	Primarios	68	58,06	9,46	55,77	60,35	
	Secundarios	141	58,89	8,34	57,51	60,28	
	Universitarios	176	57,30	8,74	56,00	58,59	
	Total	385	58,02	8,73	57,14	58,89	0,27
Entorno escolar	Primarios	68	56,47	5,24	55,20	57,74	
	Secundarios	141	56,08	4,80	55,28	56,88	
	Universitarios	177	57,19	4,22	56,57	57,82	
	Total	386	56,66	4,64	56,19	57,12	0,10
Relación padres	Primarios	68	48,73	3,78	47,81	49,64	
	Secundarios	141	49,05	4,26	48,35	49,76	
	Universitarios	177	49,30	4,70	48,61	50,00	
	Total	386	49,11	4,38	48,67	49,55	0,64
Recursos económicos	Primarios	68	47,55	7,72	45,68	49,42	
	Secundarios	141	47,71	7,23	46,50	48,91	
	Universitarios	176	48,07	6,78	47,06	49,08	
	Total	385	47,84	7,10	47,13	48,56	0,84
Autonomía	Primarios	68	37,59	10,66	35,01	40,17	
	Secundarios	141	38,95	13,09	36,77	41,13	
	Universitarios	177	38,78	10,99	37,15	40,41	
	Total	386	38,63	11,73	37,46	39,81	0,72
Relación Amigos	Primarios	68	36,32	11,86	33,45	39,19	
	Secundarios	141	37,12	12,23	35,08	39,15	
	Universitarios	177	37,27	11,69	35,53	39,00	
	Total	386	37,05	11,90	35,86	38,24	0,85

Tabla 34. Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función del nivel de estudios de la madre.

		n	Media	DE	IC 95%		p
Aceptación social	Primarios	53	87,30	14,40	83,33	91,26	
	Secundarios	144	90,69	12,17	88,69	92,70	
	Universitarios	190	87,68	13,00	85,82	89,54	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,07
Estado de ánimo	Primarios	53	81,94	12,32	78,54	85,34	
	Secundarios	144	85,34	11,91	83,37	87,30	
	Universitarios	189	84,69	11,39	83,05	86,32	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,19
B. psicológico	Primarios	53	65,85	9,29	63,29	68,41	
	Secundarios	144	68,92	8,45	67,53	70,32	
	Universitarios	190	69,76	9,02	68,47	71,05	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,02
B. físico	Primarios	53	61,66	8,75	59,25	64,07	
	Secundarios	144	64,28	7,72	63,01	65,55	
	Universitarios	190	64,95	8,40	63,74	66,15	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,04
Autopercepción	Primarios	53	58,72	8,90	56,26	61,17	
	Secundarios	144	58,92	7,70	57,65	60,19	
	Universitarios	189	57,19	9,37	55,84	58,53	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,17
Entorno escolar	Primarios	53	56,54	5,19	55,11	57,97	
	Secundarios	144	56,23	4,78	55,44	57,01	
	Universitarios	190	57,04	4,36	56,41	57,66	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,28
Relación Padres	Primarios	53	49,12	3,71	48,10	50,14	
	Secundarios	144	48,87	4,16	48,18	49,55	
	Universitarios	190	49,28	4,71	48,61	49,96	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,69
Recursos Económicos	Primarios	53	48,81	7,48	46,74	50,87	
	Secundarios	144	47,87	7,55	46,63	49,11	
	Universitarios	189	47,55	6,63	46,60	48,50	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	
Autonomia	Primarios	53	38,94	10,35	36,09	41,80	0,58
	Secundarios	144	37,78	12,15	35,78	39,78	
	Universitarios	190	39,09	11,84	37,40	40,79	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	
Relación con amigos	Primarios	53	37,48	10,46	34,60	40,37	
	Secundarios	144	36,50	11,95	34,54	38,47	
	Universitarios	190	37,25	12,30	35,49	39,01	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,81

Tabla 35.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de la profesión del padre

		n	Media	DS	IC 95%		p
Aceptac. social	Amo de casa	5	82,67	24,77	51,92	113,42	
	Desempleado	20	82,67	16,81	74,80	90,53	
	Empresario	69	89,37	13,40	86,15	92,59	
	Funcionario	57	90,06	12,29	86,80	93,32	
	Trabajador	236	88,90	12,24	87,33	90,47	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,18
E. Animo	Amo de casa	5	88,57	11,61	74,16	102,98	
	Desempleado	20	80,43	13,28	74,21	86,64	
	Empresario	69	86,46	9,72	84,12	88,80	
	Funcionario	57	85,16	11,99	81,98	88,35	
	Trabajador	235	84,11	12,04	82,56	85,66	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,25
B psicológico	Amo de casa	5	65,00	3,54	60,61	69,39	
	Desempleado	20	68,00	8,65	63,95	72,05	
	Empresario	69	70,43	8,65	68,36	72,51	
	Funcionario	57	68,60	9,20	66,16	71,04	
	Trabajador	236	68,71	9,02	67,55	69,86	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,65
B. físico	Amo de casa	5	61,60	3,58	57,16	66,04	
	Desempleado	20	63,20	7,63	59,63	66,77	
	Empresario	69	65,45	7,94	63,54	67,36	
	Funcionario	57	64,28	8,71	61,97	66,59	
	Trabajador	236	64,03	8,37	62,96	65,11	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,5
B. físico + psicológico	Amo de casa	5	61,33	3,80	56,61	66,05	
	Desempleado	20	59,50	4,49	57,40	61,60	
	Empresario	69	60,77	4,47	59,70	61,85	
	Funcionario	57	61,23	3,92	60,19	62,27	
	Trabajador	236	61,55	4,75	60,94	62,16	
	Total	387	61,26	4,57	60,80	61,71	0,32
Autopercep	Amo de casa	5	60,80	13,97	43,45	78,15	
	Desempleado	20	58,40	10,33	53,56	63,24	
	Empresario	69	57,97	9,47	55,70	60,25	
	Funcionario	57	59,16	7,88	57,07	61,25	
	Trabajador	235	57,70	8,49	56,61	58,79	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,77
Entorno escolar	Amo de casa	5	55,33	5,06	49,06	61,61	
	Desempleado	20	55,50	5,44	52,96	58,04	
	Empresario	69	56,76	4,64	55,65	57,88	
	Funcionario	57	56,49	4,77	55,22	57,76	
	Trabajador	236	56,81	4,55	56,22	57,39	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,73
Padres	Amo de casa	5	51,33	7,30	42,27	60,40	
	Desemplead	20	49,67	3,88	47,85	51,48	
	Empresaria	69	48,70	4,40	47,64	49,75	
	Funcionaria	57	48,30	4,63	47,07	49,53	
	Trabajadora	236	49,32	4,27	48,77	49,87	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,32

Economía	**Amo de casa**	**5**	**45,33**	**2,98**	**41,63**	**49,04**	
	Desempleado	**20**	**49,00**	**8,99**	**44,79**	**53,21**	
	Empresario	**69**	**46,76**	**6,10**	**45,30**	**48,23**	
	Funcionario	**57**	**47,95**	**7,39**	**45,99**	**49,91**	
	Trabajador	**235**	**48,09**	**7,18**	**47,16**	**49,01**	
	Total	**386**	**47,84**	**7,09**	**47,13**	**48,55**	**0,55**
Autonomía	**Amo de casa**	**5**	**30,40**	**13,74**	**13,34**	**47,46**	
	Desempleado	**20**	**37,60**	**10,33**	**32,76**	**42,44**	
	Empresario	**69**	**37,22**	**13,20**	**34,05**	**40,39**	
	Funcionario	**57**	**38,18**	**11,44**	**35,14**	**41,21**	
	Trabajador	**236**	**39,34**	**11,44**	**37,87**	**40,81**	
	Total	**387**	**38,58**	**11,75**	**37,41**	**39,76**	**0,34**
Amigos	**Amo de casa**	**5**	**26,00**	**7,23**	**17,03**	**34,97**	
	Desempleado	**20**	**37,17**	**11,81**	**31,64**	**42,69**	
	Empresario	**69**	**36,43**	**13,13**	**33,27**	**39,58**	
	Funcionario	**57**	**37,13**	**10,94**	**34,23**	**40,04**	
	Trabajador	**236**	**37,36**	**11,82**	**35,84**	**38,87**	
	Total	**387**	**37,00**	**11,91**	**35,81**	**38,19**	**0,33**

Tabla 36.- Puntuaciones medias de CVRS en los niños que contestaron Kidscreen en función de la profesión de la madre

		n	Media	DS	IC 95%		p
Aceptación. social	Ama de casa	55	91,76	11,69	88,60	94,92	
	Desempleada	31	86,02	14,23	80,80	91,24	
	Empresaria	37	90,63	12,01	86,62	94,64	
	Funcionaria	79	88,69	12,47	85,90	91,48	
	Trabajadora	185	87,96	13,40	86,02	89,91	
	Total	387	88,75	12,95	87,46	90,05	0,21
Estado de.Animo	Ama de casa	55	85,97	12,95	82,47	89,47	
	Desemplea	31	80,18	14,13	75,00	85,37	
	Empresaria	37	85,33	10,31	81,89	88,76	
	Funcionaria	79	84,77	10,53	82,42	87,13	
	Trabajadora	184	84,61	11,64	82,92	86,30	
	Total	386	84,55	11,74	83,38	85,73	0,26
B psicológico	Ama de casa	55	68,45	8,97	66,03	70,88	
	Desemplea	31	67,10	9,11	63,76	70,44	
	Empresaria	37	70,54	9,77	67,28	73,80	
	Funcionaria	79	68,61	9,61	66,46	70,76	
	Trabajadora	185	69,16	8,40	67,94	70,38	
	Total	387	68,91	8,92	68,02	69,81	0,58
B. fisico	Ama de casa	55	64,00	8,26	61,77	66,23	
	Desemplea	31	62,84	8,40	59,76	65,92	
	Empresaria	37	65,30	9,52	62,12	68,47	
	Funcionaria	79	63,80	8,54	61,88	65,71	
	Trabajadora	185	64,54	7,88	63,40	65,68	
	Total	387	64,25	8,26	63,42	65,07	0,73
Autopercepción	Ama de casa	55	58,91	8,79	56,53	61,29	
	Desemplead	31	58,32	9,11	54,98	61,66	
	Empresaria	37	55,46	10,16	52,07	58,85	
	Funcionaria	79	57,52	8,38	55,64	59,40	
	Trabajadora	184	58,48	8,48	57,24	59,71	
	Total	386	58,04	8,74	57,17	58,92	0,34
Entorno escolar	Ama de casa	55	56,24	5,09	54,87	57,62	
	Desemplead	31	57,42	5,21	55,51	59,33	
	Empresaria	37	57,66	4,90	56,02	59,29	
	Funcionaria	79	56,08	3,88	55,21	56,94	
	Trabajadora	185	56,72	4,64	56,05	57,39	
	Total	387	56,67	4,64	56,20	57,13	0,37
Relación Padres	Ama de casa	55	48,67	3,99	47,59	49,74	
	Desemplead	31	49,03	4,05	47,55	50,52	
	Empresaria	37	47,48	3,55	46,29	48,66	
	Funcionaria	79	49,66	4,58	48,64	50,69	
	Trabajadora	185	49,33	4,56	48,67	49,99	
	Total	387	49,10	4,38	48,67	49,54	0,11
Recursos económicos	Ama de casa	55	48,00	6,21	46,32	49,68	
	Desempleada	31	48,82	6,75	46,34	51,29	
	Empresaria	37	46,31	6,66	44,09	48,53	
	Funcionaria	79	47,09	7,65	45,38	48,80	
	Trabajadora	184	48,26	7,23	47,21	49,31	
	Total	386	47,84	7,09	47,13	48,55	0,42
Autonomía	Ama de casa	55	37,38	12,13	34,10	40,66	
	Desempleada	31	36,26	9,06	32,94	39,58	
	Empresaria	37	37,51	12,77	33,26	41,77	
	Funcionaria	79	38,94	11,47	36,37	41,51	
	Trabajadora	185	39,39	11,97	37,66	41,13	
	Total	387	38,58	11,75	37,41	39,76	0,55
Relación Amigos	Ama de casa	55	36,42	12,39	33,08	39,77	
	Desempleada	31	39,78	12,08	35,35	44,22	
	Empresaria	37	35,23	12,58	31,03	39,42	
	Funcionaria	79	38,23	11,63	35,62	40,83	
	Trabajadora	185	36,54	11,73	34,84	38,24	
	Total	387	37,00	11,91	35,81	38,19	0,44

Las variables en las que no se observaron diferencias de CVRS fueron: forma de presentación clínica, antecedentes familiares de EC, frecuencia de seguimiento de la enfermedad, convivencia (padre/madre/otros familiares), nivel de estudios del padre y actividad profesional de padre/madre.

En la tabla 37 se puede ver todas las variables analizadas con el cuestionario Kidscreen y su relación con la CVRS. Para comparar los resultados con los obtenidos con el cuestionario CDDUX, en esta misma tabla y debajo de los resultados del Kidscreen, se exponen las mismas variables y su relación con el CDDUX.

Tabla 37.- Variables relacionadas con la CVRS, según las distintas dimensiones del cuestionario Kidscreen.

Dimensiones	Género	Edad encuesta	Edad dco	T evol enf	formas clínicas	Enf. asociad	AF	seguimiento	Adherencia dieta	Dificultades dieta	Sint. Transgres	Quien contesta de padres	Convi vencia	Estudios padre	Estudio madre	Profesion padre	Profesion madre
KIDSCREEN																	
Rechazo social									0,03								
Estado de ánimo		0,01				< 0,001			0,04	0,01*	0,02						
B. psicológico	< 0,001	< 0,001	< 0,001	0,01											0,02		
B. físico	< 0,001	< 0,001	< 0,001	0,01											0,04		
Autopercepción	< 0,001	< 0,001		< 0,001						< 0,001							
Entorno escolar		< 0,001		< 0,001							0,01						
Relación con Padres												<0,001*					
Recursos Económicos										0,02*							
Autonomía																	
Relación con Amigos																	
CDDUX																	
Total			0,03	0,02	0,02				< 0,01*	< 0,001*							
Tener EC	0,01			< 0,001							0,04				0,02		
comunicacion			0,02						0,01*	0,04*			<0,001	0,02			
Dieta					0,02				< 0,01*	< 0,001*							

(*) Diferencia de puntuaciones medias > 10 puntos.

3.1.3.2. Modelos de regresión lineal múltiple.

En la Tabla 38 se muestran los datos del modelo de regresión lineal múltiple para identificar las variables relacionadas de forma independiente con la CVRS.

- *Aceptación social:* la variable asociada con una disminución de la CVRS fue tener **dificultades económicas y sociales** frente al resto (-6,38; IC 95% -10,313; -2,459; p =0,002).

- *Estado de ánimo*: se asociaron con disminución de CVRS 3 variables. La variable con mayor diferencia de puntuaciones medias fue la de tener **dificultades económicas y sociales** frente al resto (-6,23; IC 95% -10,13; -2,345; p =0,002); seguido de la **edad al rellenar la encuesta** con diferencias de puntuaciones medias entre el grupo de 16 a18 años y el de 8 a 11 años (- 4,88; IC 95% -8,56; -1,19; p =0,010), y en el de 12 a 15 años frente al de 8 a 11 años (- 2,82; IC 95% - 5,28; -0,37; p =0,024) y, finalmente, la de **tener síntomas con las transgresiones** (- 3,19; IC 95% - 5,57; -0,80; p =0,009).

- *Bienestar psicológico:* se asoció con una disminución de puntuaciones medias de CVRS la **edad al rellenar la encuesta,** presentando el grupo de niños de 16 a 18 años una disminución de puntuaciones frente al de 8 a 11 años (- 6,27; IC 95% - 9,02; - 3,51; p=0,001) y el grupo de 12 a 15 años frente al de 8 a 11 años (- 2,02; IC 95% - 3,87; -0,17; p =0,033). El **género masculino** se asoció con un incremento de puntuaciones medias de CVRS (2,87; IC 95% 1,10; 4,65; p =0,002).

- *Bienestar físico:* se asoció con una disminución de puntuaciones medias de CVRS **la edad al rellenar la encuesta,** el grupo de 16 a18 años frente al de 8 a 11 años (- 5,39; IC 95% - 8,00; - 2,83; p=0,001) y el grupo de 12 a 15 años frente al de 8 a 11 años (- 1,65; IC 95% -3,37; -0,08; p =0,061), mientras que se asoció con un aumento de puntuaciones medias de CVRS el **género masculi**no frente al femenino (2,55; IC 95% 0,90; 4,20; p =0,003)

- *Entorno escolar:* se asociaron con disminución de puntuaciones medias de CVRS 2 variables, **la edad al rellenar la encuesta,** encontrándose diferencias entre 2 grupos: el de 16 a18 años frente al de 8 a 11 años (-3,55; IC 95% - 4,97; - 2,13; p<0,001) y el grupo de 12 a 15 años frente a 8 al de 11 años (- 1,88; IC 95% - 2,84; -0,92; p <0,001) y **tener síntomas con las transgresiones** (-1,36; IC 95% - 0,44; -2,29; p =0,004).

- *Autopercepción:* se asociaron con una disminución de puntuaciones medias de CVRS 2 variables: **la edad al rellenar la encuesta,** encontrándose diferencias entre 2 grupos: el de16 a18 años frente al de 8 a 11 años (- 4,58; IC 95% - 7,53; - 1,63; p=0,002) y el de 12 a 15 años frente al de 8 a 11 años (- 2,07; IC 95% - 4,13; -0,00; p =0,050) y tener **dificultades económicas y sociales frente al resto** (- 5,03; IC 95% - 7,90; - 2,15; p=0,001). Mientras que se asoció con incremento de puntuaciones medias de CVRS **el tiempo de evolución de la enfermedad**, en 2 grupos, el de menos o igual de 4 años frente al de >8 años (2,26; IC 95% - 0,17; 4,68; p=0,068) y el de 4-8 años frente al de >8 años (1,90; IC 95% - 0,30; 4,10; p=0,091).

En resumen: Las variables relacionadas de forma independiente con una peor CVRS fueron: la edad superior a los 12 años al rellenar la encuesta, las dificultades económicas y sociales, la presencia de síntomas con las transgresiones, el genero femenino y el tiempo de evolución de la enfermedad mayor de 8 años.

Tabla 38. Modelo de regresión lineal múltiple para evaluación de variables relacionadas con CVRS utilizando el cuestionario Kidscreen

		Beta	p	IC para B al 95%	
Aceptación social	Dificultades económicas y sociales vs resto	-6,386	0,002	-10,31	-2,459
Estados de ánimo					
	Edad (12-15 / 8-11)	-2,82	0,024	-5,28	-0,37
	Edad (16-18 / 8-11)	-4,88	0,010	-8,56	-1,19
	Dificultades económicas y sociales vs resto	-6,23	0,002	-10,1	-2,34
	Síntomas con las transgresiones	-3,19	0,009	-5,57	-0,80
Bienestar psicológic	Edad (12-15 / 8-11)	-2,02	0,033	-3,87	-0,17
	Edad (16-18 / 8-11)	-6,27	<0,001	-9,02	-3,51
	Género (niño/niña)	2,87	0,002	1,10	4,65
	T evolución (<4/=0>4)	-1,93	0,031	-368	-0,18
	Nivel estudios 2ario/1	-3,43	0,006	-5,68	-1,00
	Nivel estudios Univer/1	-1,99	0,015	-3,59	-0,38
Bienestar físico	Edad (12-15 / 8-11)	-1,65	0,061	-3,37	0,08
	Edad (16-18 / 8-11)	-5,39	<0,001	-8,00	-2,83
	Género (niño/niña)	2,55	0,003	0,90	4,20
Entorno escolar	Síntomas con transgresión si/ no	-1,36	0	-	-2,29
	Edad (12-15/8-11)	-1,88	<0,001	-2,84	- 0,92
	Edad (16-18/8-11)	-3,55	<0	-	-2,13
Autopercepción	Tevoluciónenf(<4/>8)	2,26	0,068	-0,17	4,68
	Tevoluc enf (4-8 />8)	1,90	0,091	-0,30	4,10
	Edad (12-15 / 8-11)	-2,07	0,050	-4,13	-0,00
	Edad (16-18 / 8-11)	-4,58	0,002	-7,53	-1,63
	Dificultades económicas y sociales vs resto	-5,03	0,001	-7,90	-2,15

4.- Comparación entre el cuestionario genérico Kidscreen y el cuestionario específico CDDUX

4.1.- Variables relacionadas con la CVRS al utilizar ambos cuestionarios

En la **tabla 39** se muestran las variables que tras realizar estudio de regresión lineal mostraron relación con la CVRS, al utilizar ambos cuestionarios.

Las variables que al ajustar modelos de regresión lineal se relacionaron con CVRS cuando se utilizaban ambos cuestionarios fueron las dificultades con la dieta (en 3 dimensiones de cada cuestionario), tener síntomas con las transgresiones y el tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico. Solo se encontró relación al utilizar CCDUX con las variables: la adherencia a la dieta, las formas clínicas de enfermedad y la edad al diagnóstico. Solo se encontró relación al utilizar Kidscreen con las variables demográficas: edad al rellenar la encuesta, el género y nivel de estudios de la madre.

T**abla 39** Variables relacionadas con la CVRS tras estudio de regresión lineal al utilizar ambos cuestionarios.

	Género Niño/niña	Edad Encuesta 12-15 /8-11	Edad Encuesta 16-18 /8-11	Edad al diagnóstico (<2 a / resto)	Tiempo evolución enfermedad (<4/>8)	Tiempo evolución enfermedad (4-8/>8)	Forma clínica no clásica vs resto	Adherencia al tto	Dificultades económicas y sociales/resto	Síntomas con transgresiones Si/NO	Nivel estudios madre Secund/ Primar	Nivel estudios madre Universit/prim
KIDSCREEN												
Aceptación social									**-6,38**			
Estado de ánimo		**-2,82**	**- 4,88**						**-6,23**	**-3,19**		
Bienestar psicológico	**2,87**	**-2,02**	**-6,27**		**-1,93**						**3,43**	**1,99**
Bienestar físico	**2,55**	**-1,65**	**-5,39**									
Entorno escolar		**-1,88**	**-3,55**							**-1,36**		
Auto percepción		**-2,07**	**-4,58**		**2,26**	**1,90**			**-5,03**			
DUX												
GLOBAL							**-3,70**	**6,03**	**-6,69**			
Tener EC					- 4,69	-3,79			-4,55	**-2,704**	**Universitario /resto 4,385**	
Comunicación				3,87				**10,95**	-5,813			
dieta							-4,50	**8,36**	-8,83			

4.2.- Comparación de las puntuaciones del cuestionario CDDUX con las repuestas a la pregunta sobre como dirían que es su salud (Kidscreen)

Como puede apreciarse en la **tabla 40**, al comparar las puntuaciones medias del cuestionario CDDUX de los niños respecto a la valoración subjetiva de su estado de salud (primera pregunta del cuestionario Kidscreen), se encontró una buena capacidad del cuestionario para diferenciar entre las respuestas “muy buena” y “excelente” ya que las puntuaciones del CDDUX fueron mayores a mejor valoración del estado de salud ($p< 0,01$), tanto en la puntuación total como en la dimensión dieta. Sin embargo, la puntuación total del CDDUX no distinguió entre las respuesta “regular” y “buena”, ya que las puntuaciones fueron similares en los niños que contestaron ambas opciones de respuesta.

En la dimensión dieta es donde se observó una mejor capacidad para diferenciar las respuestas, ya que las puntuaciones medias de CV fueron significativamente más elevadas a medida que la valoración del estado de salud fue mejor ($p<0,001$). En las dimensiones tener EC y comunicación no se observaron diferencias significativas.

En cuanto a las respuestas de los padres **(tabla 41),** al igual que ocurría en los niños, se encontró una buena capacidad del cuestionario para diferencias entre las respuestas “muy buena” y “excelente” ya que las puntuaciones del CDDUX fueron mayores a mejor valoración del estado de salud tanto en la puntuación total, como en las dimensiones comunicación y dieta ($p<0,001$). Sin embargo, el cuestionario no fue bueno para diferenciar las respuestas “regular” y “buena” en 2 escalas (la puntuación total y la dimensión dieta) ya que las puntuaciones del CDDUX fueron similares en los padres que contestaron ambas opciones de respuesta.

En la dimensión comunicación, es donde el cuestionario diferencia mejor ya que las puntuaciones medias de CV fueron significativamente más elevadas a medida que la valoración del estado de salud fue mejor ($p<0,001$).

Tabla 40. Comparación en niños entre la respuesta a la pregunta sobre como dirían que es su salud y las puntuaciones del CDDUX.

		N	Media	DE	IC al 95%		p
CDDUX Puntuación total	Regular	5	50,67	12,62	35,00	66,33	
	Buena	43	50,43	12,72	46,51	54,34	
	Muy buena	122	55,23	12,22	53,04	57,42	
	Excelente	85	58,33	12,93	55,54	61,12	
	Total	255	55,37	12,78	53,79	56,94	0,01
Tener EC	Regular	5	52,00	5,58	45,07	58,93	
	Buena	43	45,12	12,07	41,40	48,83	
	Muy buena	122	46,99	12,88	44,69	49,30	
	Excelente	85	45,80	14,28	42,72	48,88	
	Total	255	46,38	13,13	44,76	48,00	0,63
Comunicación	Regular	5	69,33	19,78	44,78	93,89	
	Buena	43	68,99	18,91	63,17	74,81	
	Muy buena	122	70,98	16,42	68,04	73,93	
	Excelente	85	74,67	16,83	71,04	78,30	
	Total	255	71,84	17,09	69,74	73,95	0,27
Dieta	Regular	5	40,67	15,53	21,39	59,95	
	Buena	43	43,80	16,91	38,59	49,00	
	Muy buena	122	51,48	15,79	48,64	54,31	
	Excelente	85	56,43	18,33	52,48	60,38	
	Total	255	51,62	17,36	49,48	53,76	0,00

Tabla 41. Comparación en los padres entre la respuesta a la pregunta sobre como dirían que es su salud y las puntuaciones del CDDUX.

		N	Media	DE		IC 95%	p
CDUX							
Puntuación total	**Regular**	**12**	**50,14**	**15,69**	**40,17**	**60,11**	
	Buena	**93**	**50,14**	**10,69**	**47,94**	**52,35**	
	Muy buena	**162**	**54,87**	**11,83**	**53,03**	**56,70**	
	Excelente	**120**	**58,88**	**13,37**	**56,46**	**61,29**	
	Total	**387**	**54,83**	**12,60**	**53,57**	**56,09**	**<0,001**
Tener EC	**Regular**	**12**	**46,11**	**14,90**	**36,65**	**55,58**	
	Buena	**93**	**47,60**	**12,42**	**45,04**	**50,16**	
	Muy buena	**162**	**49,51**	**12,58**	**47,55**	**51,46**	**0,15**
	Excelente	**120**	**51,28**	**12,81**	**48,96**	**53,59**	
	Total	**387**	**49,49**	**12,73**	**48,22**	**50,76**	
Comunicación	**Regular**	**12**	**61,67**	**10,68**	**54,88**	**68,45**	
	Buena	**93**	**64,95**	**13,72**	**62,12**	**67,77**	
	Muy buena	**162**	**69,51**	**15,64**	**67,08**	**71,93**	
	Excelente	**120**	**74,78**	**16,56**	**71,78**	**77,77**	
	Total	**387**	**69,80**	**15,82**	**68,22**	**71,38**	**<0,001**
Dieta	**Regular**	**12**	**46,39**	**20,96**	**33,07**	**59,71**	
	Buena	**93**	**44,01**	**13,96**	**41,14**	**46,89**	
	Muy buena	**162**	**50,23**	**14,60**	**47,96**	**52,49**	
	Excelente	**120**	**54,72**	**17,96**	**51,48**	**57,97**	
Total		**387**	**50,01**	**16,23**	**48,39**	**51,63**	**<0,001**

4.3. Correlación entre las dimensiones del cuestionario específico CDDUX y del genérico Kidscreen.

La correlación entre ambos cuestionarios fue mala, siendo peor en los niños que en los padres. La máxima correlación obtenida fue de 0,309 en padres y de -0,254 en niños.

En los niños, como puede verse en la **tabla 42**, las máximas correlaciones fueron inversas y se obtuvieron entre la dimensión autonomía del kidscreen y todas las dimensiones del CDDUX.

En los padres, **(tabla 43)** las mejores correlaciones entre ambos cuestionarios fueron positivas. Se obtuvieron entre la dimensión estado de ánimo del kidscreen y las dimensiones dieta y puntuación total del CDDUX.

Tabla 42. Correlación entre las puntuaciones de los cuestionarios CDDUX y Kidscreen en los niños.

Niños .n=255		CDUX Puntuación Total	Tener EC	Comunicación	Dieta
Aceptación social	Correlación Pearson	**0,028**	**0,115**	**0,009**	**-0,006**
	p	0,656	0,068	0,891	0,920
Estado de Animo	Correlación Pearson	**0,208**	**0,057**	**0,138**	**0,217**
	p	0,001	0,363	0,028	0,000
Bienestar psicológico	Correlación Pearson	**0,136**	**-0,058**	**0,096**	**0,175**
	p	0,030	0,357	0,124	0,005
Bienestar físico	Correlación Pearson	**0,159**	**-0,061**	**0,112**	**0,203**
		0,011	0,328	0,075	0,001
Autopercepción	Correlación Pearson	**0,113**	**-0,064**	**-0,019**	**0,200**
	p	0,071	0,309	0,758	0,001
Entorno escolar	Correlación Pearson	**0,012**	**-0,020**	**0,028**	**0,011**
	p	0,849	0,753	0,659	0,856
Relación Padres	Correlación Pearson	**-0,064**	**0,052**	**-0,146**	**-0,042**
	p	0,312	0,411	0,020	0,509
Recursos Económicos	Correlación Pearson	**-0,099**	**-0,021**	**-0,052**	**-0,112**
	p	0,115	0,733	0,405	0,076
Autonomía	Correlación Pearson	**-0,253**	**-0,104**	**-0,254**	**-0,208**
	p	0,000	0,096	0,000	0,001
Relación Amigos	Correlación Pearson	**-0,203**	**-0,136**	**-0,198**	**-0,151**
	p	0,001	0,029	0,002	0,016

Tabla 43. Correlación entre las puntuaciones de los cuestionarios CDDUX y Kidscreen en los padres.

n=387		CDDUX TOTAL	TENER EC	COMUNICACION	DIETA
Aceptación social	Correlación Pearson	0,268	0,118	0,243	0,252
	p	0,000	0,020	0,000	0,000
Estado de ánimo	Correlación Pearson	0,307	0,168	0,211	0,309
	p	0,000	0,001	0,000	0,000
Bienestar psicológic	Correlación Pearson	0,148	0,054	0,202	0,110
	p	0,004	0,292	0,000	0,031
Bienestar físico	Correlación Pearson	0,181	0,072	0,230	0,142
	p	0,000	0,160	0,000	0,005
Autopercepción	Correlación Pearson	0,126	0,013	0,103	0,140
	p	0,013	0,800	0,042	0,006
Entorno escolar	Correlación Pearson	-0,039	-0,080	0,031	-0,044
	p	0,443	0,116	0,548	0,384
Relación padres	Correlación Pearson	-0,008	0,031	-0,022	-0,014
	p	0,875	0,542	0,671	0,783
Recursos económ	Correlación Pearson	-0,051	-0,006	0,033	-0,092
	p	0,321	0,906	0,518	0,070
Autonomía	Correlación Pearson	-0,225	-0,134	-0,184	-0,208
	p	0,000	0,008	0,000	0,000
Amigos y apoyo	Correlación Pearson	-0,226	-0,175	-0,190	-0,189
	p	0,000	0,001	0,000	0,000

5. Comparación de las puntuaciones medias de CVRS de niños celíacos españoles y sus padres, con las obtenidas por los otros autores que han utilizado el cuestionario específico CDDUX.

Como puede verse en la **tabla 44**, las puntuaciones de los niños celíacos españoles fueron superiores a las que presentaron los niños del grupo holandés que elaboró el cuestionario, tanto en la puntuación total como en las 3 dimensiones ($p<0,01$), pero sin embargo fueron inferiores en todas las dimensiones a las de los niños del grupo argentino ($p<0,01$).

Los niños celíacos españoles presentaron una CVRS “neutra” en todas las dimensiones excepto en la dimensión comunicación, que fue “buena”. Los argentinos presentaron una CVRS “buena” excepto en tener EC que fue”neutra” y los holandeses una CVRS “neutra” en la puntuación total y en comunicación y “mala” en el resto de dimensiones.

Las puntuaciones de los padres de los niños españoles, al igual que ocurría con los niños, fueron significativamente mejores a las de los padres de niños holandeses en todas las dimensiones ($p<0,01$), y fueron peores a las de los padres de niños celíacos argentinos en las dimensiones comunicación ($p<0,05$) y dieta ($p<0,01$). Por tanto, los padres españoles y argentinos consideraron su CV “neutra” en todas las dimensiones salvo en comunicación que fue “buena”, mientras que los padres de los niños holandeses consideraron la CVRS de sus hijos como “mala” en todas las dimensiones, excepto en comunicación que fue “buena”.

Tabla 44. Comparación de puntuaciones en los 3 grupos de celíacos que utilizaron CDDUX y sus padres

CDDUX		ESPAÑA N=214		HOLANDA N=510[87]		ARGENTINA N=193[128]	
Puntuación		Media	DE	Media	DE	Media	DE
CDDUX : total	Niños	55,5	12,7	44**	15	64,9**	14,4
	Padres	54,8	12,3	39**	15	56,6	14,1
Tener EC	Niños	46,5	13,1	36**	21	53,3**	17,8
	Padres	49,8	12,6	30**	18	51,5	14,4
Comunicación	Niños	72,0	16,9	59**	21	76,0*	20,9
	Padres	69,6	15,6	53**	20	64,1**	18,3
Dieta	Niños	51,7	17,3	36**	16	65,1**	17,8
	Padres	50,0	15,7	33**	18	55,4**	17,1

(*) p<0,05
(**) p<0,01

6. Comparación de las puntuaciones medias de CVRS de niños celíacos españoles con las obtenidas por otros autores que han utilizado el cuestionario genérico Kidscreen con niños celíacos.

Se compararon las puntuaciones medias de CVRS obtenidas por nuestro grupo al utilizar el cuestionario genérico Kidscreen, con las obtenidas por Myléus y col. [101], en un grupo de niños celíacos suecos, utilizando el mismo cuestionario. Las puntuaciones medias de CVRS obtenidas por los niños suecos fueron superiores a las obtenidas por los niños celíacos de nuestro grupo (p<0,001) en todas las dimensiones, salvo en las dimensiones aceptación social y estado de ánimo, en las que las puntuaciones fueron similares en ambos grupos, como puede verse en la tabla 45.

Tabla 45 .Comparación de puntuaciones medias de CVRS de los grupos de niños celíacos que han utilizado kidscreen.

	Niños celíacos españoles n=255	Niños celíacos Suecia [101] n=90
Aceptación social	91,92 (11,82)	92,6 (15,1)
Estado de ánimo	83,71 (13,72)	82,9 (16,9)
Bienestar psicológico	70,56 (9,11)	81,8 (14,1)*
Bienestar físico	65,70 (8,37)	75,8 (16,7)*
Autopercepción	58,06 (5,51)	79,9 (18,4)*
Entorno escolar	58,03 (10,42)	76,1 (16,8)*
Relación con padres	50,06 (5,60)	87,7 (14,4)*
Recursos económicos	48,06 (8,80)	83,4 (20,9)*
Autonomía	39,12 (14,83)	81,0 (16,0)*
Amigos y apoyo social	32,18 (11,91)	80,8 (15,5)*

(*) p<0,001

7. Comparación de puntuaciones medias de CVRS de los niños celíacos españoles con las obtenidas por otros autores que han utilizado el cuestionario genérico Kidscreen de la población general, niños sanos y niños con enfermedades crónicas.

7.1. Niños de población general

Se compararon las puntuaciones medias de CVRS obtenidas con el cuestionario Kidscreen en niños celíacos españoles con las obtenidas en 3 grupos de niños de población general cuya CVRS también fue evaluada con dicho cuestionario: 1) el grupo europeo, Ravens-Sieberer[1] con el que se elaboró y validó el cuestionario, 2) el grupo español que participó en la validación de la versión española de dicho cuestionario, Tebe y col, [135] 3) el grupo argentino que participó en la validación de la versión argentina del cuestionario, Berra y col.[176]

Los resultados pueden verse en tabla 46.

Se obtuvieron puntuaciones significativamente mejores en los niños celíacos españoles respecto a los niños de población general de los 3 grupos (españoles, europeos y argentinos) en las dimensiones aceptación social, estado de ánimo, bienestar psicológico y físico, autopercepción y entorno escolar. Sin embargo, puntuaron significativamente peor los niños celíacos en las dimensiones recursos económicos, autonomía y en relación con amigos y apoyo social. ($p<0,001$).

Tabla 46. Comparación de las puntuaciones de CVRS de niños celíacos españoles con 4 grupos de niños de población general utilizando el Kidscreen

(+)Datos facilitados por los autores del cuestionario Kidscreen (Rajmil y col)

	NIÑOS CELIACOS ESPAÑA N=255	NIÑOS ESPAÑA N= 829(1) [135] (+)	NIÑOS EUROPA N=22295 (2)[117]	NIÑOS SUECOS N=12037[101]	NIÑOS ARGENTINA 8-12 a N=1919[176]	NIÑOS ARGENTINA 13-18 a N=2482[176]
Aceptación social	91,92 (11,82)	48,8 (10,3)***	50,13 (10,16)***	92 (14,7)	44,7 (11,6)***	46 (10,2)***
Estado de ánimo	83,71 (13,72)	50,9 (10,8)***	49,83 (9,70) ***	83,6(16,3)	48,3 (10,9)***	44,2 (9,9)***
Bienestar psicológico	70,56 (9,11)	52,4 (9,8)***	49,92 (9,87) ***	82,4(14,6) ***	56 (8,9)***	48,7 (9,6)***
Bienestar físico	65,70 (8,37)	51,8 (10,7)***	49,94 (9,88) ***	78,1(15,8) ***	53,6 (10)***	45,6 (9,5)***
Autopercepción	58,06 (5,51)	49,8 (9,8)***	50,17 (10,18)***	80,5(18,5) ***	54,1 (10,5)***	49,4 (9,3)***
Entorno escolar	58,03 (10,42)	52,1 (10,7)***	50,05 (10,14) ***	76,4(17,1) ***	56,9 (11,1)	46,2 (8,5)***
Relación con Padres	50,06 (5,60)	51,2 (9,5)***	50,13 (10,16)	86,9(14,8) ***	53,9 (10) ***	48,2 (10,7)***
Recursos económicos	48,06 (8,80)	50 (8,9)***	50,19 (10,21) ***	83,1(20,3) ***	47,9 (9,7)	47,8 (8,7)
Autonomía	39,12 (14,83)	52,2 (9,7)***	50,11 (10,14) ***	81,2(15,8) ***	53,1 (10,4)***	49 (10,3)***
Relación con amigos	31,69 (11,72)	54,4 (9,6)***	50,13(10,16) ***	80,5(15,4) ***	55,9 (10,8)***	53,9 (10,2)***

****** <0,001; ** 0,009: *0,03***

7.2. Niños sanos y niños con enfermedades crónicas

Los niños de población general, españoles y europeos, que participaron en la validación de Kidscreen fueron divididos en 2 grupos, niños sanos y con enfermedades crónicas, tras cumplimentar una escala de necesidades de salud (escala CSHCN)

Se compararon las puntuaciones medias de los niños celíacos españoles con las obtenidas de los niños españoles y europeos sanos y con enfermedades crónicas, como puede verse en la tabla 47.

Se obtuvieron puntuaciones significativamente mejores en los niños celíacos españoles respecto a los niños con enfermedades crónicas de ambos grupos en las dimensiones aceptación social, estado de ánimo, bienestar psicológico y físico, autopercepción y entorno escolar y relación con los padres.

Sin embargo, puntuaron significativamente peor los niños celíacos en las dimensiones autonomía y en la de relación con amigos y apoyo social. ($p<0,001$). En la dimensión recursos económicos hubo diferencias entre los celíacos españoles y los niños españoles con enfermedades crónicas ($p<0,001$), pero no las hubo con los niños europeos con enfermedades crónicas.

Los niños celíacos españoles puntuaron significativamente mejor que los niños sanos españoles en todas las dimensiones excepto en recursos económicos y mejor que los niños sanos europeos en todas las dimensiones excepto en recursos económicos.

Tabla 47. Comparación de resultados de Kidscreen en niños celíacos españoles y otros grupos de niños con enfermedades crónicas.

	Niños celíacos España N=255	Niños sanos España (1)[135]	Niños España enf. crónicas (2)[135]	Niños Europeos sanos N= 13575- 13929[124]	Niños Europeos enf. crónicas 1630-1664[124]
Aceptación social	91,48 (12,64)	49,2 (10,2)**	43,4 (11,2)**	49,82(9,74)**	47,13(10,83)**
Estado de ánimo	84,26 (13,64)	51,4 (10,9)**	45,7 (9,2)**	50,46 (9,68)**	48,09(9,76)**
Bienestar psicológico	70,57 (8,68)	52,7 (9,8)**	47,9 (10,2)**	50,66(9,76)**	47,57(9,93)**
Bienestar físico	65,81 (8,05)	52,1 (10,6)**	46.8 (10,4)**	51,11(9,89)**	46,88(10,06)**
Autopercepción	58,83 (10,50)	49,9 (9,9)**	50,0 (10,3)**	50,41(9,83)**	48,58(9,75)**
Entorno escolar	58,08 (5,38)	52,5 (10,7)**	47,2 (9,3)**	50,29(9,93)**	48,13(9,98)**
Relación con Padres	50,07 (5,36)	51,6 (9,5)**	47,6 (8,8)**	49,94(9,72)	47,61(9,80)**
Recursos económicos	48,26 (9,07)	50,9 (9,0)	50,3 (8,2)**	49,81(9,98)*	47,69(10,34)
Autonomía	39,62 (14,68)	52,4 (9,79)**	48,4 (9,1)**	50,23(9,93)**	48,56(9,77)**
Relación con amigos	31,69 (11,72)	54,6 (9,5)**	49,8 (9,9)**	49,99(9,89)**	46,97(10,07)**

(1)+(2)= Niños españoles de población general =784-854

*****p<0,001;* p=0,007***

V. DISCUSION

1.- DISCUSION DE LA METODOLOGÍA

La valoración de la CVRS ha despertado un interés creciente entre los investigadores y los profesionales sanitarios, aumentando la sensibilización ante estos aspectos de la enfermedad hasta hace poco desconocidos y que tanto pueden influir en el bienestar de los enfermos.

La mejor herramienta disponible para valorar de forma objetiva la CVRS son los cuestionarios de CV. Para evaluar la CV en los enfermos celíacos, al igual que ocurrió en otras enfermedades, inicialmente se utilizaron cuestionarios genéricos y posteriormente surgieron los cuestionarios específicos, que se centran más en la enfermedad y su tratamiento y permiten identificar los problemas más relevantes en relación con la enfermedad.

El interés por evaluar la percepción de CVRS y los posibles problemas que los niños celíacos y sus padres pudieran tener en relación con su enfermedad y tener que realizar la dieta sin gluten, nos motivó a realizar este trabajo. En el momento en que se realizó el estudio la CVRS de los niños celíacos españoles apenas había sido evaluada y no se disponía de cuestionarios específicos de CV para estos niños en nuestro medio. Por aquel entonces, solo se disponía de un cuestionario específico de CVRS para niños celíacos, que había sido elaborado y validado en Holanda, el cuestionario CDDUX.[87] Este cuestionario, además de su rigor metodológico, tenía la peculiaridad de haber sido elaborado siguiendo la metodología *bottom-up*, es decir, teniendo en cuenta la opinión de los propios niños, y no solo la de sus padres o investigadores, que era la principalmente evaluada en los estudios previos de CVRS que intentaban evaluar la CV en niños. Esta metodología permitió obtener una valiosa información por parte de los propios niños, que los investigadores e incluso sus propios padres nunca hubieran considerado[87]. Otro aspecto a destacar era que contaba con una versión para niños y otra para padres, lo que permitía obtener una información mas completa sobre cómo percibían la enfermedad unos y otros, y comparar la percepción de cada niño con su padre. Esta metodología es considerada como “centrada en los niños”, y ha sido diseñada para asegurarse que son ellos o sus padres quienes generan,

priorizan y explican los temas que les preocupan acerca de su enfermedad. Recientemente se ha realizado la adaptación transcultural de dicho cuestionario en español en Argentina.[170]

Las peculiaridades del cuestionario CDDUX, principalmente ser el primer instrumento específico de CVRS para niños celíacos, y la ausencia de un instrumento de estas características en nuestro país, motivaron nuestro interés en adaptarlo transculturalmente para poder utilizarlo en nuestro medio.

Se adaptó el cuestionario existente en lugar de crear un nuevo cuestionario, ya que, por consenso internacional se aconseja realizar la adaptación y validación de los cuestionarios ya disponibles antes que crear cuestionarios de novo.[115,116,177] Esto se debe a que utilizar un instrumento previamente validado tiene varias ventajas, como permitir ahorrar el esfuerzo y coste económico que supone la creación de un cuestionario de novo, aprovechar la experiencia de los autores del cuestionario original con el uso del cuestionario y posibilitar las comparaciones internacionales.

Recientemente se ha elaborado otro cuestionario específico de CVRS para niños celíacos en Estados Unidos, el cuestionario CDPQOL, [84] que consta de dos versiones, una para niños de 8 a 12 años y otra para niños de 13 a 18 años. Esto le diferencia del cuestionario CDDUX que, aunque fue validado por grupos de edad, tiene una versión única para niños de 8 a 18 años. Según estos autores, durante el proceso de validación del cuestionario pudieron apreciar como los problemas que presentaban los niños celíacos en las distintas etapas de su vida cambiaban con la edad, de ahí la importancia de hacer cuestionarios diferentes por rangos de edad. La mayoría de los ítems del cuestionario holandés (8/12) se centran en los sentimientos y experiencias en relación con la dieta, mientras que el cuestionario americano investiga otras implicaciones que puede tener el hecho de vivir con la EC, como son los problemas emocionales y sociales experimentados por los niños diagnosticados de esta enfermedad y los mecanismos utilizados para afrontar dichos problemas, no evaluados con el cuestionario CDDUX.

Los cuestionarios específicos no permiten valorar la CVRS general, por lo que, para evaluar los aspectos generales de la vida, sería necesario utilizar

simultáneamente un cuestionario genérico. De hecho, los expertos en CV[108–110] recomiendan la utilización simultánea de un cuestionario genérico centrado en los aspectos generales de la vida y otro específico, centrado en los aspectos específicos en relación con la enfermedad y el impacto que supone en la vida del enfermo, para poder realizar una valoración mas completa de su CV y para permitir su comparación con otras poblaciones. Algunos autores han resaltado la necesidad de utilizar simultáneamente ambos tipos de cuestionarios para realización de estudios clínicos en gastroenterología.[112,113]

Y varios estudios realizados en celíacos adultos que han utilizado ambos tipos de cuestionarios, destacan la importancia de su utilización conjunta.[63,159]

Por este motivo, y con el fin de poder evaluar la CVRS de los niños celíacos y sus padres de la forma más completa posible, se seleccionó además un cuestionario genérico, que nos permitiría comparar a nuestros pacientes con la población general y con otros niños con enfermedades crónicas.

El instrumento genérico seleccionado fue el cuestionario Kidscreen,[123] porque había sido diseñado con gran rigor metodológico y había sido elaborado para su aplicación en niños del mismo rango de edad que el cuestionario CDDUX. Otra peculiaridad de este cuestionario es ser el único desarrollado y validado simultáneamente en varios países europeos, entre ellos España,[135] por lo que su uso nos permitiría comparar la CVRS de nuestros pacientes con la de los niños españoles de población general que participaron en el estudio de validación del cuestionario, además de que facilitaría las comparaciones internacionales.[117] De hecho, este ha sido uno de los cuestionarios mas utilizado para realizar estudios de CVRS en niños de todos los continentes.[101,135,136,138–141,176,178] Además, cuenta con una versión para niños y otra para padres,[142] igual que el cuestionario CDDUX, por lo que nos permitiría conocer la valoración de la CV general por parte de los niños celíacos y de sus padres y comparar la percepción de CV de unos y otros.

El cuestionario Kidscreen tiene tres versiones, que constan de 10[179], 27[180] y 52[117,124] ítems respectivamente. Esta última versión tiene la desventaja de que requiere mayor tiempo para cumplimentarla, pero es la más completa. Por este motivo se seleccionó para nuestro estudio, con el fin de obtener la mayor

información posible sobre la CV general de nuestros pacientes, aun con el riesgo de una menor respuesta.

Con el fin de tener la mayor representación posible de los niños de nuestra Comunidad, se contactó con la Asociación de Celíacos y Sensibles al Gluten de la Comunidad de Madrid (ACySGM). Esto es una fortaleza de nuestro estudio respecto a otros, como el estudio argentino de validación del CDDUX, [170] en el que solo participaron los niños de un centro sanitario. Otra ventaja de la participación de pacientes de una asociación de celíacos es que generalmente este tipo de pacientes son más colaboradores a la hora de cumplimentar cuestionarios. Por otra parte, y aunque muchos de los estudios de CVRS publicados se han realizado a través de asociaciones, el hecho de que sólo estén incluidos pacientes miembros de una asociación de celíacos podría implicar un sesgo de selección y condicionar las respuestas. Este tipo de pacientes por lo general son buenos cumplidores de la dieta y están muy concienciados con la enfermedad, como muestran los resultados de nuestro estudio, por lo que su valoración de la CVRS quizá sea mas positiva que la de otros niños celíacos que no pertenecen a asociaciones, entre otros motivos por falta de recursos económicos ó por tener menor conciencia de enfermedad.

Una limitación del estudio es que al no disponer de un registro del número total de niños celíacos de la Comunidad de Madrid en el momento de contestar la encuesta, desconocemos el porcentaje de pacientes pertenecientes a la ACySGM y desconocemos la representatividad de la muestra respecto al total de niños celíacos de Madrid. En otros estudios, como el realizado por los autores que elaboraron el CCDUX [87], el porcentaje de pacientes celíacos pertenecientes a asociaciones es elevado, refiriendo en su artículo estos autores que era superior al 80%, pero no podemos extrapolar que en nuestro país sea similar el porcentaje de asociados.

La encuesta se realizó a través de internet para facilitar la cumplimentación interfiriendo lo menos posible en las actividades habituales de niños y padres. Posiblemente si se hubieran tenido que desplazar para contestar el cuestionario la participación hubiera sido menor. Además, la realización on-line nos permitiría obtener una gran información de forma sencilla, evitando la posible influencia del entrevistador y conservando el anonimato del paciente. Para evitar que se

influyeran en las contestaciones, se enviaron por separado las encuestas a niños y padres y se solicitó que no las cumplimentaran de forma conjunta, aunque al haberse enviado on-line no podemos garantizar que se hayan respondido de forma independiente y que no hayan influido los padres en las respuestas de los niños.

Al limitar el estudio a los pacientes que tuvieran correo electrónico, los que no disponían de internet no pudieron participar, por lo tanto, los niños celíacos sin correo electrónico no están representados. Sin embargo, cuando se comparó la distribución de la muestra por grupos de edad y género con el total de niños de 8-18 años asociados en el momento de realizar el estudio a la ACySGM, se observó que aunque contestaba una mayor proporción de niños de 12-15 años, la muestra era representativa, ya que no había diferencias significativas entre los 2 grupos.

Los cuestionarios se contestaban siguiendo un orden, de forma que el primer cuestionario que se cumplimentaba era el CDDUX, que resultaba más sencillo y gráfico de realizar al presentarse las opciones de respuesta en forma de caritas con expresiones faciales, y en segundo lugar se contestaba el Kidscreen. y no podía pasarse al siguiente sin haber completado previamente el anterior. El 10% de los pacientes que cumplimentaron el primer cuestionario no llegaron a cumplimentar el kidscreen, posiblemente debido a la mayor extensión de este segundo cuestionario y a que se necesitaba más tiempo para su realización.

Además de los dos cuestionarios, se envió una encuesta de datos clínicos y epidemiológicos, que se solicitó que cumplimentaran sólo los padres para evitar la duplicidad de la información. Por tanto, los datos clínicos se obtuvieron a través de la percepción subjetiva de los padres, pero no se utilizó ninguna escala objetiva de medición de variables como la adherencia a la dieta o los síntomas con las transgresiones, lo que obliga a ser cautos en cuanto a la interpretación de los resultados.[116]

La primera parte de nuestro estudio consistió en realizar la adaptación transcultural de la versión inglesa del cuestionario específico CDDUX al idioma español en nuestro medio, con el fin de poder utilizarlo en niños celíacos españoles del mismo rango de edad. La adaptación se realizó siguiendo una metodología rigurosa y sistemática según criterios internacionalmente consensuados, [173,174] con

el fin de preservar los conceptos y contenidos del cuestionario original y conseguir una versión culturalmente adecuada para la población objeto de estudio y semánticamente equivalente a la versión original.

El proceso de adaptación transcultural es bastante más complejo que la realización de una simple traducción del instrumento de la lengua original al idioma del país que lo pretende adaptar, siendo necesario utilizar en muchas ocasiones expresiones lingüísticas diferentes para captar los mismos significados de los conceptos que se intenta medir. Esta metodología ha sido utilizada en España para la adaptación de diversos instrumentos de CVRS tanto para adultos. [116,156,157,162,181–184]

También se ha utilizado en celíacos, para adaptar un cuestionario específico en pacientes adultos, el cuestionario CD-QOL.[162] Y para realizar la adaptación transcultural del cuestionario CDDUX al español en Argentina.[128]

A pesar de las posibles diferencias culturales entre España y Holanda, durante el proceso de adaptación del cuestionario CDDUX al español no se encontraron problemas importantes ni en la traducción ni en la adaptación de los contenidos de las preguntas, ya que la mayoría estaban formuladas de forma sencilla. Hay que tener en cuenta, además, que uno de los autores del cuestionario original, de lengua madre española, comprobó que la primera versión española había mantenido el contenido y significado de cada una de las preguntas de la versión original, realizándose tan solo pequeños cambios semánticos, con lo que se obtuvo la *segunda versión española*. Dado que en el proceso de adaptación de un cuestionario a una nueva cultura es importante conocer como interpreta la población a la que va dirigido los contenidos del cuestionario, [116] se solicitó a un grupo reducido de niños celíacos de 8-18 años y a sus padres que realizaran el test de comprensión mediante la cumplimentación de la encuesta, con el fin de identificar si algún ítem generaba confusión en cuanto a su interpretación. No hubo apenas problemas de interpretación, por lo que tras este último paso se obtuvo la versión definitiva del cuestionario CDDUX adaptada al español.

2.- DISCUSIÓN DE LOS RESULTADOS

2.1. Datos demográficos

La participación del género femenino fue mayor, tal y como se observa en la mayoría de los estudios, tanto en niños,[61,66,87,100,128,185] como en adultos celíacos, [94,146,152,158] en probable relación con la mayor prevalencia de la enfermedad en este grupo. [6,8,29,35,186,187] Y con la mayor preocupación por la enfermedad inherente al género femenino. [89,155,158,188]

En la mayoría de estudios de CV realizados en niños celíacos la participación de los adolescentes ha sido escasa y, aunque se ha sugerido una peor CVRS en este grupo de edad, esta escasa participación obliga a interpretar con precaución los resultados. [87,99,128] Sin embargo, en nuestro estudio el porcentaje de adolescentes que contestó fue mayor, ya que el 47% tenía entre 12 y 15 años, por lo que los resultados tienen una mayor relevancia. Este aspecto se puede considerar una fortaleza del estudio y aporta una información valiosa sobre la percepción de la CVRS de nuestros adolescentes.

De los padres que contestaron, la madre lo hizo en la mayor parte de los casos, como muestran otros estudios. [87,99,128] Completaron la encuesta mayor número de padres que de hijos (casi 62% de las encuestas fueron contestadas por los padres), posiblemente debido a que la capacidad de mantener el interés y la paciencia a la hora de cumplimentar los cuestionarios es mayor en un adulto. En los otros 2 estudios que se realizaron utilizando el cuestionario CCDUX y en el de Byström,[87,99,128] solo se muestran los resultados de los cuestionarios contestados por niños y padres, por lo que no podemos conocer si fue mayor la cumplimentación de unos u otros.

Dado que el número de padres que contestó fue mayor y que no había diferencias relevantes entre las puntuaciones medias de niños y padres, se decidió trabajar con los resultados obtenidos a través de los padres para aumentar el tamaño muestral y por tanto la potencia del estudio.

En nuestro estudio la mayoría de los niños que participaron convivían con ambos padres, al igual que ocurría en los niños del grupo holandés que elaboró CDDUX.[87] Esto está en discrepancia con la creencia tradicional de que en las familias de niños con enfermedades crónicas el porcentaje de divorcios y separaciones de los padres es mayor, entre otros motivos por la mayor carga emocional y los posibles conflictos que pueden surgir entre los conyuges en relación con la enfermedad.

No hay muchos estudios de estas características que hayan evaluado el nivel socioeconómico y cultural de los pacientes que cumplimentan este tipo de encuestas. Aunque no era el objetivo del estudio, nos pareció interesante analizar este dato, ya que podría influir en la percepción de CV de los pacientes. Casi la mitad de los padres que contestaron la encuesta eran universitarios y la mayoría de ellos trabajaban, siendo el nivel de desempleo inferior al 10%, mientras que el porcentaje de universitarios y el nivel de desempleo que había en España en el año 2011, cuando se cumplimentó la encuesta, era del 30-35% y del 21,6%, respectivamente.[189] Por tanto, el nivel sociocultural y económico de la mayoría de nuestros pacientes era elevado comparado con la población general. Sin embargo, los celíacos argentinos del estudio de validación del CDDUX,[128,170] tenían un menor nivel socioeconómico y cultural, ya que según estos autores, casi un tercio de los niños se encontraban bajo el umbral de la pobreza y no tenían siquiera estudios primarios y un 41% de ellos tenía sus necesidades básicas insatisfechas, según cálculo del Instituto Nacional de Estadística Argentino.

2.2.- Datos clínicos

La forma clínica de presentación más frecuentemente referida fue la clásica, sobre todo en los dos primeros años de edad. Aunque parece haberse producido un cambio generalizado de presentación de esta enfermedad hacia formas no clásicas en niños escolares,[22–25] en el registro español de EC (REPAC)[12] siguen predominando las formas clásicas en el niño pequeño y nuestro grupo de estudio es un reflejo de la presentación de la EC en nuestro medio.

En nuestro estudio llama la atención lo poco representados que están los niños diagnosticados por cribado, solo 3 pacientes (0,7%). Se podría especular

sobre las posibles causas, destacando entre las mismas la menor conciencia de enfermedad de los pacientes asintomáticos y posiblemente una menor motivación para cumplimentar los cuestionarios. Mientras que otros grupos como Byström y col,[99] observaron en niños celíacos suecos un 8,9% de formas asintomáticas en un estudio que se llevó a cabo en un hospital y no a través de asociaciones de celíacos.

La mayoría de los niños celíacos que participaron en nuestro estudio (el 71%), referían que realizaban seguimiento médico una vez al año, por lo que nuestra muestra refleja bien el seguimiento habitual que se realiza en la mayor parte de las Unidades de Gastroenterología Infantil en nuestro país. En los celíacos adultos el seguimiento es menor, como muestran los datos obtenidos en el estudio piloto que realizó nuestro grupo en la ACySGM, [64,65] en el que el 94,5% de los encuestados acudía a revisiones médicas con una frecuencia y periodicidad significativamente mayor en niños que en adultos, siendo el porcentaje de trasgresiones casi el doble en adultos que en niños.

La adherencia al tratamiento referida por los padres de nuestros pacientes tras un tiempo medio de 9 años de seguimiento fue elevada (97%) y similar a la observada por otros autores. [66,99,190]

Sin embargo, dos estudios realizados con adolescentes diagnosticados por cribado mostraron una adherencia del 81% a los 10 años de seguimiento[96] y del 23% a los 5 años, [60]respectivamente. Hall y col [62] observaron en celíacos adultos un porcentaje de adherencia muy variable ,entre el 42-91%, siendo menor en los diagnosticados en la infancia. La diferencia de cumplimiento en los distintos estudios pueden deberse, según refieren estos autores, a las distintas definiciones del grado de adherencia utilizadas, ya que no existe una definición estandarizada. También pueden influir otros factores como la disponibilidad de productos sin gluten, la financiación de los mismos, las creencias culturales y el estilo de vida, que no han sido lo suficientemente estudiados. Es posible que en nuestro trabajo la adherencia esté sobreestimada, ya que los pacientes que no cumplen la dieta no suelen participar en este tipo de estudios y los que participan tienen mas conciencia de enfermedad y por lo general cumplen la dieta de forma correcta, como refieren Hall y col. [62]

El 35 % de los pacientes referían síntomas cuando realizaba transgresiones, mientras que Rashid[66] los observó en la mitad de los niños canadienses. Según estos autores la elevada presencia de síntomas con las transgresiones les condiciona a realizar un mejor cumplimiento. Sin embargo, en nuestro estudio no hemos encontrado diferencias respecto al cumplimiento de la dieta entre los pacientes con o sin síntomas con los transgresiones, aunque hay que tener en cuenta que la interpretación de los síntomas con las transgresiones es subjetiva.

El porcentaje de pacientes que presentaba dificultades con la dieta era similar al referido por Ukkola [94]en adultos (11%), pero muy inferior al observado por Biagetti y Rashid[66,97] en niños, o Lee[59] en adultos. Las principales causas fueron las dificultades para comer fuera de casa (67%) y las dificultades sociales (25%) como previamente se había destacado en otros estudios.[59,66] Lee, en un estudio realizado en 2003,[59] registró dificultades con la dieta en la mayor parte de los celíacos adultos americanos que contestaron su cuestionario. De estos, el 86% presentaban dificultades para comer fuera de casa, el 82% cuando viajaban y el 67% referían un impacto importante de la enfermedad en su familia. Rashid y col [66] en 2010, observaron que el 50% de los niños canadienses entrevistados evitaba comer fuera de casa, y de ellos el 28% presentaba problemas con el etiquetado de los alimentos y para encontrar productos sin gluten en los supermercados y en los restaurantes. Biagetti,[97] en un estudio posterior, observó dificultades con la dieta en el 72% de sus pacientes, refiriendo que algunos de los problemas referidos en los primeros estudios de CV en celíacos, como la mala calidad de los productos sin gluten, se han resuelto en los últimos años, aunque aún quedan otros problemas por solventar. Las principales dificultades que tenían que afrontar los niños italianos de su estudio se relacionaban con factores ambientales, como el escaso conocimiento que aún existe sobre la enfermedad por parte de la población general y la escasa disponibilidad de productos sin gluten en muchos restaurantes y establecimientos públicos.

Jordan y col.[84] destacaron en su trabajo las mayores dificultades que presentaban para vivir el día a día con esta enfermedad los celíacos americanos frente a los europeos, ya que según destacan estos autores, en Europa existe un mayor conocimiento y conciencia de la sociedad con la EC y la disponibilidad de

productos sin gluten es mayor. Además, en algunos países europeos, como Gran Bretaña, Italia y Francia, los productos sin gluten están financiados al menos en parte por el Servicio Nacional de Salud, lo que contribuye a que el malestar de estos pacientes sea menor.

2.3. CVRS utilizando el cuestionario CDDUX

2.3.1. Validación del cuestionario CDDUX

Tras la elaboración de la versión española del cuestionario CDDUX, se comprobaron sus propiedades psicométricas,[119,173,174] mostrando una adecuada fiabilidad y validez, con el fin de garantizar que sus cualidades fueran similares a las del instrumento original y facilitar la aplicabilidad del instrumento en nuestro medio.

La versión española del cuestionario CDDUX mostró tener unas adecuadas propiedades psicométricas en sus dos versiones, tanto la de niños como la de padres, con un gran acuerdo intra-cuestionario, ya que el coeficiente alfa de Cronbach o fiabilidad intra-cuestionario que se obtuvo en la puntuación total y en las 3 dimensiones y el rango del coeficiente de cada pregunta con su dimensión fueron superiores al valor de 0,7, superando el criterio de alfa de Cronbach recomendado por acuerdo internacional para considerar que un cuestionario tiene una buena consistencia interna.

La fiabilidad de las puntuaciones entre padres e hijos se calculó mediante el coeficiente de correlación intraclase y fue superior a 0,6 en todas las dimensiones, salvo en comunicación que fue de 0,58. Por acuerdo internacional se considera que los valores del coeficiente de correlación comprendidos entre 0,4 y 0,6 se corresponden con una fiabilidad moderada y si son superiores a 0,6 la fiabilidad es buena, por lo que podemos decir que la fiabilidad o correlación de las respuestas de niños y padres obtenidas con nuestro cuestionario fue buena, salvo en la dimensión comunicación, en la que fue moderada.

Por tanto, los resultados obtenidos nos permiten afirmar que la versión española de este cuestionario es válida y fiable para su uso de forma

autoadministrada, tanto en los niños celíacos españoles de nuestro medio como en sus padres o informadores indirectos.

2.3.2. CVRS en los niños celíacos españoles y comparación con sus padres

El cuestionario CDDUX consta de 3 dimensiones con preguntas sobre la vida día a día con la EC. La *dimensión tener EC* proporciona información sobre como se siente el niño cuando le ofrecen productos con gluten, o cuando piensa en alimentos que contienen gluten. La dimensión c*omunicación*, se centra en como se sienten los niños al tener que hablar con otros de su enfermedad o tener que explicarles lo que es la EC, y la dimensión *dieta* en como se siente el niño por tener que cumplir una dieta restrictiva durante toda la vida.

Los niños de nuestro estudio y sus padres mostraron una opinión similar sobre la CVRS, sin encontrarse apenas diferencias ni en la comparación independiente ni en la emparejada de cada niño con su padre. Consideraron su CVRS "neutra" en todas las dimensiones, salvo en comunicación en la que la consideraron "buena". Parece, por tanto, que vivir día a día con la enfermedad no afecta significativamente su CV y tener que hablar con otras personas de su enfermedad, o tener que explicarles lo que es la EC, no les genera conflicto.

La dimensión tener EC es en la única en la que los padres puntuaron significativamente mejor, por lo que parece que a los niños les afecta mas que les pregunten sobre cómo se sienten cuando les ofrecen o piensan en alimentos que contienen gluten. Pero la diferencia de puntuaciones observada en esta dimensión no fue relevante, ya que tanto niños como padres consideraron "neutra" la valoración de la CV en esta dimensión.

A diferencia de lo observado en nuestro trabajo, en el que apenas se encontraron diferencias en la valoración de la CVRS proporcionada por los niños y sus padres, en la mayoría de los estudios la percepción de la CV de los padres es peor que la de los propios niños. Esto ocurre en niños celíacos evaluados tanto con el cuestionario específico CDDUX, [87,96,128,170] como con un cuestionario genérico, [99] y también en niños con otras enfermedades crónicas.[129,169,191] Algunos autores han interpretado que la peor valoración de la CV realizada por los padres

de niños con enfermedades crónicas se debe al sentimiento de responsabilidad y culpa que tienen por la enfermedad que padecen sus hijos.[131] Se ha observado que cuanto mejores son las puntuaciones de los padres mejor es la percepción de CV de los niños.[192] Este podría ser el caso de nuestra población y quizá eso explicaría que no hayamos observado diferencias entre padres e hijos.

Nuestro estudio registró una "buena" correlación de respuestas entre niños y padres en todas las dimensiones salvo en comunicación que fue "moderada", y fue superior a la registrada por el grupo holandés que elaboró el cuestionario, que mostró una correlación "moderada", y por el grupo argentino que lo validó, que mostró una correlación "mala". Las diferencias observadas podrían justificarse en parte por la distinta metodología respecto a como se cumplimentaron los cuestionarios y por la distinta explotación estadística empleada en su cálculo.

El cuestionario CDDUX no contiene ítems respecto a los sentimientos de culpa si se realizan transgresiones, debido a que los niños que participaron en los grupos de trabajo que elaboraron el cuestionario no lo consideraron como un problema en su CV. Se centra en las consecuencia de tener la EC y en como los niños piensan y sienten sobre su enfermedad y tener que realizar un tratamiento para toda la vida. Tampoco aborda este cuestionario los mecanismos que utilizan los celíacos para afrontar la enfermedad y los problemas en relación con el cumplimiento de la dieta, a diferencia de otros autores que han evaluado estos aspectos en estudios mas recientes.[84]

Los autores argentinos del CDDUX intentaron conocer el grado de satisfacción de los niños y padres que rellenaron el cuestionario y observaron, tanto en el estudio de validación[128] como en un estudio posterior sobre la implementación del cuestionario en la consulta,[171] que la mayoría de los niños y sus padres lo aceptaban bien y les resultaba útil porque les ayudaba a expresar problemas que posiblemente no hubieran referido, pero que eran importantes y su gastroenterólogo debería conocer. En este último estudio también cumplimentaron el cuestionario los gastroenterólogos que atendían a estos pacientes, afirmando que su realización no había interferido en el desarrollo de la consulta y, de acuerdo con la opinión de niños y padres, la información proporcionada por estos les

permitió detectar ciertos aspectos de su enfermedad que requerían atención sanitaria.

2.3.3. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros grupos de niños celíacos.

Al haber utilizado el mismo instrumento de medida, podemos comparar nuestros resultados con los obtenidos por el grupo holandés que elaboró el cuestionario[87] y con el grupo argentino que lo validó posteriormente. [128]

En general, los niños españoles y sus padres consideraron su CVRS significativamente peor que los argentinos, pero mejor que los holandeses. Los niños y padres españoles puntuaron su CVRS como “neutra” en la puntuación total, tener EC y dieta y “buena” en la dimensión comunicación. Los padres argentinos mostraron puntuaciones de CV muy similares a las de los padres españoles y, aunque hubo diferencias en las dimensiones comunicación y dieta, al igual que aquellos, consideraron la CV de sus hijos como “neutra”, salvo en la dimensión comunicación en la que fue “buena”. Sin embargo, las puntuaciones de los niños argentinos fueron significativamente mejores a las de los españoles y consideraron su CVRS “buena” en todas las dimensiones salvo en tener EC donde fue considerada “neutra”.

El grupo que presentó las peores puntuaciones fue el holandés. Puntuaron peor los padres, que consideraron la CV de sus hijos como “mala” en todas las dimensiones salvo en comunicación, en la que fue considerada como “neutra”, mientras que los niños holandeses consideraron su CVRS “neutra” en la puntuación total y comunicación y “mala” en las dimensiones tener EC y dieta.

Se observaron diferencias significativas en todas las dimensiones entre las puntuaciones proporcionadas por los niños de nuestro grupo y los niños holandeses. Estas diferencias fueron relevantes en las dimensiones tener EC y dieta, en las que los holandeses tenían una percepción de su CV como “mala” y los españoles como “neutra”.

Los padres holandeses son los que expresaron una peor percepción de CV y presentaron puntuaciones significativamente peores y que los españoles en todas

las dimensiones. Estas diferencias fueron relevantes, ya que en la puntuación total, tener EC y dieta, los españoles puntuaron su CV como “neutra” y los holandeses como “mala” y en comunicación los españoles la puntuaron como “buena” y los holandeses como “neutra”.

Por lo tanto, a modo de resúmen, las mejores puntuaciones se obtuvieron en el grupo argentino, seguidas de las del español y por último del holandés, tanto en niños como en padres. En los 3 grupos la dimensión peor valorada fue la de tener EC y la mejor la de comunicación.

Van Koppen y col [96] también utilizó el cuestionario CDDDUX para evaluar la CVRS en adolescentes celíacos holandeses diagnosticados por cribado y mostraron puntuaciones muy similares a las obtenidas por Van Doorn[87] en el estudio original de elaboración del cuestionario.

Puede deducirse, por tanto, que los motivos de preocupación en relación con la enfermedad son muy similares en los niños celíacos y los padres en distintos países. Les preocupa sobre todo tener que realizar una dieta restrictiva para toda la vida y los aspectos relacionados con el cumplimiento de la dieta. Los aspectos que menos les afectan, sin embargo, son aquellos relacionados con tener que hablar con otros acerca de su enfermedad.

No hemos encontrado una explicación a estas diferencias de percepción de la CV que muestras los celíacos de distintos países y sus padres, ya que, por ejemplo, al comparar la CVRS de niños argentinos y españoles de población general utilizando el instrumento genérico kidscreen, no se observaron las diferencias de percepción de la CVRS que se observan en niños celíacos de las mismas poblaciones.[135,176]

Para tratar de investigar las causas a las que podríamos atribuir los diferentes resultados obtenidos entre nuestro grupo y el grupo argentino se contactó con la Dra Picó, autora de la versión argentina del cuestionario. Según esta autora, las explicaciones podrían radicar en que en el estudio argentino un 64% de los niños recibían financiación de los productos sin gluten, aunque de forma muy diversa y no uniforme para todos los pacientes. Así mismo, otro factor

que podría influir según la autora es que en su país el abordaje del paciente celíaco se realiza de forma multidisciplinar e intervienen en su atención, además del gastroenterólogo, nutricionistas, psicólogos y trabajadores sociales, mientras que en nuestro medio el abordaje es realizado principalmente por el gastroenterólogo y la asociación de celíacos.

Pocos estudios han evaluado la relación entre el nivel socioeconómico y la CVRS. Los autores de la versión argentina del CDDUX[128] si lo hicieron y observaron que los niños celíacos con menor nivel socioeconómico tenían peores puntuaciones medias, siendo estas diferencias significativas en los padres. Según estos autores, estos resultados podrían estar relacionados con el mayor impacto que el nivel de pobreza tiene en los padres, ya que son ellos quienes se enfrentan día a día con los gastos que implica la compra de productos sin gluten. A pesar de que el nivel socioeconómico de nuestro grupo era superior al argentino, ya que en el argentino el 24,4 % de los pacientes eran pobres y el 4,7% indigentes, las puntuaciones de CV de los niños argentinos fueron significativamente mejores que las de los españoles. En cuanto a los padres, que son quienes asumen el gasto económico, no presentaron diferente percepción de CVRS, salvo en la dimensión dieta en la que puntuaron significativamente mejor los argentinos, cuando lo que cabría esperar es que éstos tuvieran una peor percepción de CV debido a sus mayores dificultades económicas.

La relación entre la CV y el nivel socioeconómico es controvertida, ya que hay autores [90] que no encuentran relación ,y otros que si la encuentran, como Ravens y col, [117] que observaron peor CV en los niños de población general, que tenían un nivel socioeconómico más bajo.

2.4. Cuestionario KIDSCREEN.

2.4.1. CVRS en los niños celíacos españoles y comparación con sus padres.

2.4.1.1. Respuesta a la pregunta del cuestionario sobre como dirían que es su salud

La valoración subjetiva del estado de salud por parte de niños y padres fue muy positiva. En el caso de los padres, el 98% opinaba que la salud de sus hijos era “excelente”, “muy buena” o “buena”. Solo el 3% opinaba que era “regular” y ninguno de ellos consideraba que fuera ”mala”. Podemos comparar nuestros resultados con los obtenidos en el estudio holandés que elaboró CDDUX. En dicho estudio también se preguntó a los padres por el estado de salud de sus hijos. Contestaron que su salud era “muy buena” o “buena” el 89% de los padres. Un 6% consideraron que su salud no era mala ni buena (no sano/no enfermo) y un 5% consideraban que su hijo/a estaba enfermo (de ellos incluso un 1% consideraba que su hijo estaba muy enfermo). Por tanto, el porcentaje de los padres que opinaban que la salud de sus hijos era “mala” fue mayor en el grupo holandés. Estos resultados concuerdan con la peor valoración de la CVRS en relación con la enfermedad referida por los holandeses respecto a los españoles al utilizar el cuestionario CDDUX.

En la comparación de las respuestas independientes a la pregunta sobre el estado de salud de los niños, no se encontraron diferencias significativas entre padres e hijos y en cuanto a la distribución de las respuestas en cada una de las categorías de salud (excelente, muy buena, buena, regular y mala) hubo una proporción de acuerdo total superior al 50% entre niños y padres.

Para evaluar si había concordancia entre las respuestas de cada niño con su padre respecto a la pregunta sobre como consideraban que era su salud, se utilizó el índice de kappa ponderado, observándose una concordancia del 0,42, que según acuerdo internacional se considera moderada, al encontrarse sus valores entre 0,40-0,60.

2.4.1.2. Respuesta a las dimensiones del cuestionario y comparación de respuestas de niños y padres.

Al comparar las respuestas de niños y padres, tanto en la comparación emparejada como en la independiente el orden de puntuaciones fue similar. Las puntuaciones más altas se observaron en las dimensiones *aceptación social y estado de ánimo*, por lo que parece que los niños celíacos no sienten rechazo, miedo o intimidación por parte de otros chicos y su estado de ánimo es bueno. Las siguientes dimensiones mejor puntuadas fueron las de *bienestar psicológico y físico,* con puntuaciones entre 60-80 (que se corresponde con una buena CV), parece, por lo tanto, que los niños celíacos y sus padres se muestran contentos y satisfechos con su vida y no creen tener problemas de salud física o limitación de sus actividades por el hecho de tener la EC.

En las *dimensiones de autopercepción*, *entorno escolar*, *relaciones con los padres y recursos económicos* las puntuaciones estaban entre 40-60, por lo que en estos aspectos su CV se podría considerar "neutra" y no parece que se vea afectada por tener la EC. En cuanto a la *autopercepción*, no perciben de forma negativa su forma de ser, su aspecto físico o su manera de vestir y los objetos materiales que poseen. Respecto a las *relaciones escolares*, no tienen problemas en la relación con sus profesores, o con su rendimiento escolar y no se sienten tristes en el colegio. Tampoco tienen problemas en la *relación con los padres* en el entorno familiar, ni con los *recursos económicos* de los que disponen cuando salen con sus amigos. Sin embargo, las puntuaciones fueron menores de 40 en dos dimensiones: en la de *autonomía y en la de relación con los amigos y apoyo social.* Podría relacionarse la baja puntuación en *autonomía* con una mayor protección del niño celíaco por parte sus padres o cuidadores en las actividades de ocio, al aire libre o cuando salen con sus amigos u otros niños. La peor puntuación se obtuvo en la dimensión *relación con los amigos y relación con los amigos*, por lo que parece que los aspectos que más les preocupan a niños y padres son los referentes a sus relaciones con otros niños, y perciben que no pueden contar con sus amigos en caso de que necesiten pedirles ayuda o si tienen problemas. Este aspecto es, por tanto, el más negativo de su CV.

Al comparar las respuestas independientes de niños y padres hubo diferencias en 6 dimensiones. Los niños puntuaron significativamente mejor en

cinco de ellas, *aceptación social, bienestar psicológico, bienestar físico, entorno escolar y relaciones con los padres.* Puntuaron significativamente peor solo en una dimensión *relación con los amigos y apoyo social*. En la comparación emparejada se obtuvieron diferencias en las mismas dimensiones, pero también se observó en la *dimensión autonomía* en la que puntuaron mejor los niños.

Estos resultados difieren de los observados con el cuestionario específico, ya que con dicho cuestionario no se encontraron apenas diferencias entre las puntuaciones de niños y padres. Sin embargo, concuerdan con lo observado en la mayoría de estudios que evalúan la CV de niños y padres celíacos, en los que los padres puntúan peor. Esto se observa tanto cuando se utilizan cuestionarios genéricos de CV, [99] como específicos, [87,96,128] y en niños con otras enfermedades crónicas. [129,169,191]

2.4.2. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros grupos de niños celíacos que han utilizado el cuestionario Kidscreen

Aunque el cuestionario Kidscreen ha sido ampliamente utilizado en población general, para valorar la CV en niños celíacos apenas ha sido utilizado. En un estudio reciente, Myléus y colaboradores[101] evaluaron la CV en un grupo de niños suecos celíacos. Las puntuaciones medias obtenidas por estos niños fueron superiores a las de los niños de nuestro estudio en todas las dimensiones, excepto en dos, la de *aceptación social y la de estado de ánimo*, en las que no se encontraron diferencias significativas entre los dos grupos. En ambos, la dimensión mejor puntuada fue la de *aceptación social*, por lo que parece que ni los niños celíacos españoles ni los suecos se sienten rechazado por otros niños. Las dimensiones *relación con los padres y recursos económicos* fueron las siguientes mejor puntuadas por los celíacos suecos mientras que nuestro grupo puntuó mejor en la de *estado de ánimo.*

Llama la atención las excelentes puntuaciones de CVRS registradas por los niños suecos, que valoraron su CVRS por encima de 80 en siete de las diez dimensiones, siendo por orden de mayor a menor, la *aceptación social, relación con los padres, recursos económicos, estado de ánimo, bienestar psicológico, autonomía y amigos y apoyo social.* Estas dos últimas dimensiones fueron, sin

embargo, las peor valoradas por los niños españoles, con diferencias superiores a 40 puntos entre ambos grupos. Estas diferencias quizá puedan deberse a que los niños suecos tienen suficiente autonomía e independencia en las relaciones sociales y en las que mantienen con sus amigos y por este motivo puntúan muy bien, mientras que los españoles puntúan mal porque quizá se sientan sobreprotegidos por sus padres.

Los aspectos que más les preocupan a los celíacos suecos son su bienestar físico, las relaciones escolares y su autopercepción, ya que puntúan peor en estas tres escalas y, aún así, la valoración de su CV es significativamente superior a la de los niños españoles, con una diferencia superior a diez puntos entre los dos grupos.

No podemos explicar a que se debe la diferente percepción de CVRS observadas entre los niños celíacos españoles y suecos. Las mejores puntuaciones registradas por estos últimos podrían tener relación con varios factores, entre los que se encuentran, el mayor nivel de vida y la financiación de los productos sin gluten en menores de 16 años en ese país, lo que sin duda puede contribuir a una mejor percepción de CV por parte de estos pacientes.

2.4.3. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con niños de población general con el cuestionario Kidscreen.

Los niños celíacos españoles puntuaron significativamente mejor que los tres grupos de niños de población general, españoles, europeos y argentinos, de los estudios de elaboración y validación del cuestionario Kidscreen, en seis dimensiones: *aceptación social, estado de ánimo, bienestar psicológico y físico, autopercepción y entorno escolar,* con puntuaciones superiores a 60, mientras que los tres grupos de niños de población general puntuaron en todas las dimensiones entre 40-55. Parece que los niños celíacos tienen una mejor percepción de su salud física y psicológica, de su estado de ánimo, de como se sienten consigo mismos y de sus relaciones escolares que los niños de población general. Sin embargo, sus puntuaciones fueron significativamente peores en dos dimensiones, *autonomía y relación con los amigos y apoyo social*, posiblemente, como ya se ha comentado, por una mayor preocupación de sus padres por su enfermedad, lo que conlleva una mayor supervisión y menor independencia para sus actividades

respecto a otros niños de su edad. En las dimensiones *relación con los padres y recursos económicos* no hubo apenas diferencias entre los grupos, ya que puntuaron todos ellos en torno a 50. Los niños celíacos no parece que perciban los aspectos relacionados con la economía o las relaciones con sus padres de forma diferente a los niños de la población general.

Cuando se compararon nuestros resultados con los obtenidos por Myléus[101] en Suecia con niños de población general, las puntuaciones de los niños suecos fueron significativamente mejores en 8 de las 10 dimensiones. Estos autores observaron una CV muy buena y similar en los niños celíacos de su estudio a los niños de la población general.

Byström [99] utilizando el cuestionario genérico DISABKIDS y Nordyke,[100] utilizando el cuestionario genérico EQ-5D, al igual que Myléus ,[101] observaron en niños suecos una CVRS similar a la población general del mismo rango de edad. Wagner y col [92] observaron esto mismo con niños austríacos.

Por tanto, las discrepancias entre los distintos estudios respecto al impacto de la dieta sin gluten en la CV de los pacientes celíacos es grande, ya que si bien algunos observan un impacto negativo, tanto en adultos,[78,86,88–91] como en niños, [60,87] otros observan que la CV de los niños celíacos puede ser similar a la de la población general.[96,99–101,164]

2.4.4. Comparación de la CVRS de los niños celíacos españoles con otros niños con enfermedades crónicas

Nos pareció interesante evaluar si los niños celíacos españoles puntuaban diferente a los niños con otras enfermedades crónicas, por lo que comparamos nuestros resultados con los obtenidos en el estudio de elaboración del Kidscreen, en el que se habían diferenciado los niños con enfermedades crónicas de los de población general, al cumplimentar una escala de necesidades de salud.

Los niños celíacos españoles puntuaron significativamente mejor que los niños españoles y europeos con enfermedades crónicas en siete de las diez dimensiones, *aceptación social, estado de ánimo, bienestar psicológico y físico,*

autopercepción, entorno escolar y relación con los padres, y puntuaron peor solo en dos, *autonomía y relación con los amigos y apoyo social,* mientras que apenas hubo diferencias en cuanto a la dimensión *recursos económicos*.

Al igual que lo observado en nuestro estudio, Van Doorn y col,[87] utilizando el cuestionario genérico DUX 25, observaron que los niños celíacos holandeses percibían su CV mejor que los niños con otras enfermedades crónicas como asma, artritis reumatoide o diabetes. Byström y col, [99] utilizando el cuestionario genérico DISABKIDS, observaron que los niños celíacos tenían una mejor percepción de su CV que los niños con otras enfermedades crónicas como la parálisis cerebral y el asma. Ninguno de estos autores hace referencia a las posibles causas de la mejor CV de los celíacos, pero quizá una explicación podría ser que la EC no es una enfermedad tan limitante como otras enfermedades crónicas con las que se compara, ni requiere ingresos ni tratamientos médicos como en estas patologías.

2.5 Comparación entre el cuestionario genérico Kidscreen y el cuestionario específico CDDUX

2.5.1. Comparación de las puntuaciones de ambos cuestionarios.

Para facilitar la comparación de los resultados de los dos cuestionarios utilizados en nuestro estudio, se transformaron sus puntuaciones en una escala de Likert de 5 puntos, con rango de 0-100. Con el cuestionario específico, los niños celíacos de nuestro estudio mostraron una CVRS “neutra” cuando se les preguntaba sobre como vivían con la EC, con puntuaciones medias entre 46 y 55, mientras que con el cuestionario genérico Kidscreen, sus puntuaciones medias oscilaban entre 48 y 92. Con el cuestionario genérico las puntuaciones fueron más elevadas en seis de las diez dimensiones y sólo puntuaron peor en *la relación con los padres, los recursos económicos, autonomía y en la relación con amigos y apoyo social*, que son los aspectos que más les preocupan.

Nuestros resultados son similares a los obtenidos por otros autores que han utilizado simultáneamente un cuestionario genérico y otro específico. Se observan puntuaciones medias de CVRS más altas con el cuestionario genérico que con el

específico, en estudios realizados tanto en niños celíacos europeos como argentinos y de los EEUU. [84,87,96,128]

Estas diferencias podrian explicarse por la distinta información que proporcionan uno y otro tipo de cuestionarios.

Asimismo, Van Doorn y col observaron en los niños celíacos holandeses y sus padres una CVRS de “mala” a “neutra” con el cuestionario específico, mientras que con el instrumento genérico, los mismos niños y padres referían una CVRS “buena”. Estos mismos resultados observados por Van Koppen y col,[96] utilizando los mismos instrumentos genérico y específico.

Llama la atención que la percepción de CV de los niños celíacos argentinos y holandeses era muy similar utilizando dos cuestionarios genéricos diferentes y, sin embargo, cuando utilizaron el cuestionario específico CDDUX puntuaron significativamente mejor los argentinos. Hallazgos como estos refuerzan la necesidad de utilizar instrumentos específicos ya que permiten detectar problemas en relación con la enfermedad no evidenciados con los cuestionarios genéricos.

En nuestro estudio, no se obtuvieron apenas diferencias entre las puntuaciones de niños y padres con el cuestionario específico. Sin embargo, con el cuestionario genérico hubo diferencias en 6 dimensiones, puntuando significativamente mejor los niños en todas ellas, excepto en la de *relación con los amigos y apoyo social* en la que puntuaron mejor los padres, por lo que parece que los niños encuentran mas problemas cuando se relacionan con sus amigos o en sociedad, de los que perciben sus padres.
Por el contrario, Pico y col[128] y Van Doorn y col[87] registraron puntuaciones similares a sus hijos con el cuestionario genérico pero con el específico puntuaron peor.

2.5.2. Comparación de las puntuaciones del cuestionario CDDUX con las repuestas a la pregunta sobre como dirían que es su salud (Kidscreen)

Al preguntar a niños y padres por el estado de salud (primera pregunta del cuestionario Kidscreen), y comparar estas respuestas con las puntuaciones del cuestionario CDDUX, se observó que el cuestionario específico tenía una buena capacidad para diferenciar entre la salud "muy buena" y "excelente" del Kidscreen, porque las puntuaciones del CDDUX eran mas altas a mejor valoración del estado de salud. Sin embargo, el cuestionario CDDUX no diferenciaba bien entre el estado de salud referido como "regular" y "bueno", ya que en ambos casos las puntuaciones del CDDUX eran similares.

2.5.3. Correlación entre ambos cuestionarios

En nuestro estudio, la correlación entre el cuestionario genérico Kidscreen y el específico CDDUX fue mala, siendo peor en niños que en padres. Así mismo, Jordan y col[84] obtuvieron una mala correlación entre el cuestionario genérico PedsQL y la dimensión física del cuestionario específico CDPQOL, pero sin embargo con la dimensión psicosocial de este cuestionario la correlación fue moderada. Picó y col [128] observaron que la correlación del CDDUX con el cuestionario PedsQLTM 4.0 era moderada, por tanto entre este ultimo cuestionario y el CDDUX hay mejor correlación que la observada por nosotros con el Kidscreen. En celíacos adultos, Casellas y col[162] observaron una correlación moderada entre los dos cuestionarios genéricos EuroQol y el D-FIS (Daily Fatigue Impact Scale) y el cuestionario específico CD-QOL. Estas discrepancias se pueden explican por el diferente tipo de información obtenida con ambos tipos de cuestionarios, y por la distinta metodología empleada en su cálculo. Los cuestionarios específicos de EC se centran en los aspectos de la vida que se ven influenciados por tener la enfermedad y tener que cumplir una dieta restrictiva durante toda la vida, mientras que los genéricos valoran las distintas dimensiones que condicionan la CV general. El individuo puede tener una CVRS general buena pero tener problemas relacionados con su enfermedad que no detecta un cuestionario genérico, de ahí la importancia de utilizar ambos.

2.5.4. Variables relacionadas con la CVRS al utilizar ambos cuestionarios.

2.5.4.1. Análisis univariable

Al analizar la CVRS en función de las variables demográficas y clínicas, con el cuestionario específico se observaron diferencias tanto en la puntuación total como en las dimensiones respecto a la edad al diagnóstico, el tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico, las formas de presentación clínica, la adherencia a la dieta, tener dificultades con la dieta y tener síntomas con las transgresiones. Hubo cinco variables para las cuales no se encontraron diferencias en la puntuación total pero si en las dimensiones, el género, la presencia o no de síntomas con las transgresiones, el nivel de estudios de padre o madre y el tipo de convivencia. No se observaron diferencias, ni en la puntuación total ni en las dimensiones, en la edad al rellenar la encuesta, la presencia de antecedentes familiares o de enfermedades asociadas, el grado de seguimiento de la enfermedad, la profesión del padre o de la madre y quién de los padres contestaba la encuesta.

Con el cuestionario genérico se encontraron diferencias significativas en las variables edad al cumplimentar la encuesta, edad al diagnóstico, tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico, enfermedades asociadas, adherencia a la dieta, dificultades con la dieta, síntomas con las transgresiones, nivel de estudios de la madre y quién de los padres contesta la encuesta. No se observaron diferencias respecto a las formas clínicas de presentación, antecedentes familiares, seguimiento de la enfermedad, convivencia, profesión de los padres o nivel de estudios del padre.

El análisis univariable mostró que con el cuestionario específico puntuaron peor los niños con mas de 7 años al diagnóstico, con menor de 4 años de evolución, los que presentaron las formas no clásicas y los diagnosticados por cribado, los que no cumplían siempre la dieta, los que presentaban dificultades sociales y económicas para cumplir la dieta, los que tenían síntomas con las transgresiones y los que vivían solo con su madre o su padre. Con el cuestionario genérico se observó una peor CV en las niñas, en los que tenían mas de 7 años al diagnóstico, en los de más de 8 años de evolución de la enfermedad, en los adolescentes con

mayor edad al rellenar la encuesta, en los que tenían enfermedades asociadas, en los que no cumplían la dieta y en los que presentaban dificultades con la dieta por motivos sociales, económicas o inseguridad para comer fuera de casa, en los que presentaban síntomas con las transgresiones y en los que la madre tenía menor nivel de estudios.

A continuación se comentan los resultados más significativos al analizar la CVRS en función de las distintas variables, con ambos cuestionarios.

- **Edad al cumplimentar la encuesta**

En nuestro estudio no se observaron diferencias según la edad al cumplimentar la encuesta cuando se utilizó el cuestionario específico, pero los autores de la versión argentina de CDDUX[128] observaron mejores puntuaciones en los adolescentes de 12 a 15 años mientras que los holandeses no analizaron este dato.

Sin embargo, cuando nuestros pacientes cumplimentaron el cuestionario genérico kidscreen, se encontraron diferencias en 5 cinco de las diez dimensiones, *estado de ánimo, bienestar psicológico, bienestar físico, entorno escolar y autopercepción*. En todas ellas puntuaron mejor los niños de menor edad (8-11 años), mientras que los de mayor edad (16-18 años) puntuaron peor. Por tanto, con el cuestionario genérico se observaron peores puntuaciones de CV en adolescentes tardíos al igual que habían observado otros autores.[87]

La percepción de CV en los adolescentes celíacos, clásicamente ha sido considerada como peor.[61,87,166] Olsson y col[61] hicieron un estudio cualitativo con adolescentes celíacos suecos y detectaron en ellos una especial preocupación por tener que realizar la dieta sin gluten en situaciones sociales, debido al escaso conocimiento de la enfermedad y a la escasa disponibilidad de productos sin gluten en esas situaciones, lo que les hacía sentirse diferentes a los demás.

Van Doorn y col,[87] al igual que lo observado por nuestro grupo al utilizar el cuestionario Kidscreen, observaron peores puntuaciones de CV en los adolescentes de 16-18 años con el cuestionario genérico DUX 25, aunque en este

estudio el número de adolescentes tardíos era muy escaso, lo que da a los resultados un valor limitado. Entre las posibles explicaciones a la peor percepción de la CV en los adolescentes, estos autores consideran el mayor tiempo viviendo con la enfermedad y la posibilidad de que los adolescentes con mejor CV no fueran miembros de la asociación de celíacos y que por tanto no hubieran participado en el estudio. Aunque, la explicación más plausible sería la atribuida a la edad, ya que los adolescentes en general tienen una peor apreciación de su CV, según han referido otros autores.[61,166,193]

Altobelli y col [166] observaron, al utilizar el cuestionario genérico SF-12 en un grupo de adolescentes de 10-18 años italianos, que estos niños presentaban peores puntuaciones en la escala mental del cuestionario que los niños de 14-17 años de población general, aunque en la escala de salud física no se encontraron diferencias. La mayoría de estos niños referían sentirse enfadados siempre o la mayor parte del tiempo por tener que realizar una dieta sin gluten y el 20% se sentian diferentes a los demás niños y no comprendían la EC. Sin embargo, no observaron diferencias de CV en los niños analizados por grupos de edad, como tampoco las observaron Bystrom y col[99] en niños celíacos suecos al utilizar el cuestionario genérico DISABKIDS, ni Hausër y col, [90] con celíacos adultos alemanes utilizando un cuestionario específico.

En contraste con la mayoría de estudios que muestran una escasa participación y peores puntuaciones de CV en adolescentes,[87,99,128,166] en nuestro estudio la participación de adolescentes fue mayor y mostraron con el cuestionario específico una CV similar a los niños de menor edad, mientras que con el cuestionario genérico se observaron peores puntuaciones en los niños de mayor edad en 5 de las 10 dimensiones.

El mayor número de adolescentes incluidos en nuestro estudio, en relación a estudios previos, añade valor a los resultados obtenidos y nos ha permitido conocer mejor como viven la enfermedad los pacientes de este grupo de edad.

La percepción de la CV tan positiva obtenida por los adolescentes celíacos españoles con el cuestionario específico, podría relacionarse con una mayor conciencia e interés por la enfermedad, que se deduce de su elevada participación en el estudio.

- **Género**

En nuestro estudio, puntuaron peor las niñas, tanto con el cuestionario específico como con el genérico, al igual que se había observado en otros estudios realizados en celíacos adultos en los que las mujeres referían una peor percepción de su CV. [89,146,152,158] Con el cuestionario específico solo puntuaron peor en la dimensión tener EC, mientras que con el genérico puntuaron peor en tres de las diez dimensiones, *bienestar psicológico, bienestar físico y autopercepción,* aunque la diferencias de puntuaciones fue mínima. Hallert y col [194]refieren en su trabajo que las diferencias de CV observadas entre hombres y mujeres pueden deberse a la diferente manera de vivir con la enfermedad y hacer frente a la misma que tienen unos y otros. Según estos autores, las mujeres permanecen mas sintomáticas a pesar de realizar correctamente la dieta y les afectan más las restricciones en su vida diaria por tener que controlar el contenido de gluten de los alimentos. Sverker y col[95] tambíen observaron una peor percepción de CV en las mujeres que podría estar en probable relación con la diferente situación social respecto a los hombres, ya que generalmente están mas implicadas en la preparación de alimentos y en la compra de productos sin gluten. Otra posible explicación, tal y como otros autores han observado, sería la peor percepción de CV innata al género femenino independientemente de su estado de salud o enfermedad.[158]

Sin embargo, otros autores no observaron diferencias en función del género, ni en adultos,[90] ni en niños.[128,166]

- **Edad al diagnóstico y tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico**

Con el cuestionario específico, las mejores puntuaciones se obtuvieron en los niños con menos de dos años y las peores en los que tenían más de siete años al diagnóstico, aunque todos los grupos de edad puntuaron su CV como “neutra” en la puntuación total y como “buena” en comunicación, independientemente de la edad al diagnóstico. Con el cuestionario genérico, solo se observaron diferencias en, *bienestar físico y psicológico*, en las que puntuaron peor los niños de mayor edad al diagnóstico al igual que lo observado con el cuestionario específico, y en otros estudios.[74,99]

A la vista de los estudios realizados en niños, parecen tener una mejor percepción de CV los diagnosticados a menor edad. Esto podría tener relación con la mejor adaptación a los cambios dietéticos en la primera infancia cuando estos hábitos aún no están muy afianzados.

Respecto al tiempo de evolución de la enfermedad, con el cuestionario específico puntuaron mejor aquellos niños con más de ocho años de evolución tras el diagnóstico, pero todos consideraron su CV "neutra" independientemente del tiempo de evolución. Con el cuestionario genérico no se obtuvieron diferencias en la mayoría de las dimensiones, con la excepción de *bienestar fisico y psicológico* donde los de mayor tiempo de evolución puntuaron mejor y en *entorno escolar y autopercepción* donde puntuaron peor. Otros autores como Byström y col[99] también registraron peor CV en los celíacos con más tiempo de evolución de su enfermedad. Sin embargo, en adultos los resultados son controvertidos, posiblemente por la diferente metodología utilizada. Ukkola[94] y Haüser [90]registraron una peor percepción de la CVRS en adultos celíacos que habían sido diagnosticados de EC en la infancia. Mientras que Haüser[90] y Zingone[163] no encontraron relación entre los años transcurridos tras el diagnóstico de la enfermedad y la CVRS.

- **Formas clínicas de enfermedad**

Con el cuestionario específico, las peores puntuaciones se observaron en los que referían como formas de presentación las no clásicas y en los que habían sido diagnosticados por cribado, aunque todos puntuaron su CV como "neutra" independientemente de la forma de presentación. La peor puntuación se obtuvo en los que referían haber sido diagnosticados por cribado en la dimensión dieta. No obstante, el escaso número de pacientes en este grupo, limita el poder estadístico de estos hallazgos. Sin embargo, con el cuestionario genérico, no se encontraron diferencias según las formas de presentación clínica.

Otros autores, como Byström[99] y Fabiani,[60] también registraron peor CV en los niños con formas no clásicas y en los diagnosticados por cribado utilizando cuestionarios genéricos, mientras que en nuestro estudio sólo el cuestionario

específico fue capaz de detectarlas. Ukkola,[94] observó estos mismos hallazgos en celiacos adultos finlandeses. La peor CVRS observada en las formas no clásicas podría ser atribuida a la ausencia de síntomas en estos pacientes y a la escasa percepción de mejoría que tienen al realizar el tratamiento dietético, mientras que los pacientes sintomáticos perciben una clara mejoría de sus síntomas y por tanto de su CVRS.[60]

- **Enfermedades asociadas**

Con el cuestionario específico no se observaron diferencias en la CV en función de la presencia de enfermedades asociadas y con el genérico solo las hubo en dos dimensiones. En *estado de ánimo* puntuaron peor los que tenían enfermedades asociadas y en *relación con amigos y apoyo social*, los que no tenían enfermedades asociadas, lo cual resulta paradójico. Aunque no hay estudios al respecto en niños, parece más lógico pensar, como han observado otros autores con pacientes adultos, que la presencia de comorbilidades asociadas a la EC conlleva una peor CV.[90,148,158]

- **Antecedentes familiares**

Nos pareció interesante analizar si había diferencias en la percepción de CV en función de la existencia de antecedentes familiares, ya que no hemos encontrado otros estudios que hayan evaluado esta posible asociación. No se encontraron diferencias, en función de los antecedentes familiares, con ninguno de los dos cuestionarios.

- **Adherencia al tratamiento**

Con el cuestionario específico, puntuaron significativamente mejor los niños que cumplían la dieta siempre en todas las dimensiones excepto en tener EC. En la dimensión dieta es donde se observaron las máximas diferencias, ya que consideraban su CV “neutra” los que cumplían la dieta siempre, “mala” los que la cumplían a veces y “muy mala” el único paciente que solo cumplía la dieta algunas veces. No obstante, estos resultados hay que interpretarlos con precaución, dado el escaso número de pacientes que no cumplían la dieta siempre y que la

adherencia al tratamiento ha sido registrada a través de la impresión subjetiva de los padres. Con el cuestionario genérico no se observaron diferencias en la mayoría de las dimensiones, por lo que, aunque registraron mejores puntuaciones de CV los niños que cumplían la dieta adecuadamente en las dimensiones *estado de ánimo y la aceptación social*, la adherencia no influye en la mayoría de las esferas de la CV general.

Los resultados obtenidos con el cuestionario específico concuerdan con los publicados por otros muchos autores, que también observaron peor CV en los niños celíacos que no cumplían la dieta, tanto utilizando cuestionarios específicos, [128] como genéricos [92,166] y en los estudios realizados en celíacos adultos. [58,144–146,148,195,196]

Casellas y col,[195] en un estudio multicéntrico reciente realizado en España en celíacos adultos, observaron una peor adherencia en los no cumplidores, tanto cuando se utilizaba un cuestionario genérico (EuroQol-5D) como con un cuestionario específico (CD-QOL). Sin embargo, otros autores, [81,197] utilizando cuestionarios genéricos como el SF 36, no encontraron relación entre la adherencia a la dieta y la CVRS, de forma parecida a lo observado por nosotros al utilizar el Kidscreen.

Aunque no hemos evaluado en nuestro estudio los motivos por los que algunos pacientes no cumplen la dieta y se sienten insatisfechos con su CV, se podría plantear como posible causa de que esto suceda, como refiere Casellas,[195] la frustración de estos pacientes al percibir que no existen otras alternativas al tratamiento de su enfermedad que tener que realizar una dieta restrictiva toda la vida.

Parece que a la vista de los resultados de nuestro estudio y de lo registrado por la mayoría de autores, realizar la dieta de forma estricta mejora la percepción que tienen los pacientes de su CV. Por esta razón, los profesionales sanitarios debemos tomar las medidas necesarias para fomentar el cumplimiento de la dieta por parte del paciente y contribuir de esta forma a su mayor bienestar.

- **Dificultades con la dieta**

Con el cuestionario específico, los niños que referían dificultades con la dieta puntuaron peor su CVRS en todas las dimensiones, principalmente los que tenían dificultades sociales y económicas, que valoraron su CV como “mala” en la dimensión dieta. Sin embargo, los que no tenían dificultades y los que tenían inseguridad para comer fuera de casa la valoraron como “neutra”. Con el cuestionario genérico, solo se observaron diferencias en 3 dimensiones, *estado de ánimo, autopercepción y recursos económicos*. En la dimensión *estado de ánimo*, puntuaron peor los que tenían dificultades económicas, en *autopercepción* los que tenían dificultades sociales, y en la de *recursos económicos* los que tenían inseguridad al comer fuera de casa, siendo esta última la dimensión peor puntuada.

Otros estudios realizados con cuestionarios genéricos, tanto en niños[97,97,166] como en adultos, [145,148,196,198] han mostrado peor CVRS en los pacientes con dificultades económicas y sociales para cumplir la dieta, al igual que observamos nosotros con el cuestionario kidscreen y con el CDDUX.

Un caso especial es el de los adolescentes, que parecen tener mas problemas sociales debido a que en esta etapa de la vida, se forma la identidad del individuo y les preocupa especialmente las relaciones sociales con sus iguales.[61,89,92,95,193] .

Numerosos estudios han investigado la influencia de la dieta sin gluten en la CV en la población celíaca, [59,158,164,166,198] y han reconocido que el acto de comer, no es una mera necesidad psicológica y física, sino que además tiene un valor simbólico en términos culturales, sociales y en como se relaciona el individuo con su entorno. Es fácil entender que los principales motivos de preocupación de este colectivo sea la dificultad que implica realizar la dieta, que se ve incrementada en el grupo que tiene dificultades económicas y sociales en relación con la dieta sin gluten.

- **Síntomas con las transgresiones**

Con el cuestionario específico, los niños que referían tener síntomas con las transgresiones puntuaron peor que los que no los presentaban en la dimensión tener EC, pero independientemente de la presencia o no de síntomas consideraron su CV como "neutra". Por el contrario Picó y col,[128] utilizando el mismo cuestionario, no observaron estas diferencias.

Sin embargo, al utilizar el cuestionario genérico, solo observamos relación entre la CVRS y la presencia de síntomas con las transgresiones en las dimensiones *estado de ánimo y entorno escolar*. Puntuaron peor en el primer caso los que presentaban síntomas pero paradójicamente en el segundo caso los que no los tenían.

Casellas y col [158]observaron que la presencia de síntomas con las transgresiones afectaban significativamente la CV en celíacos adultos, lo que sugiere según estos autores, que el cumplimiento de la dieta y el adecuado control de los síntomas son decisivos para que el paciente recupere su CV y la salud autopercibida. Parece lógico pensar, tal y como señalan, que la presencia de síntomas con las transgresiones empeore la CV del paciente celíaco, debido entre otros factores a las molestías percibidas en su salud física, por lo que el adecuado cumplimiento de la dieta y el control de los síntomas les ayudará a mejorar su CV.

- **Seguimiento de la enfermedad**

Aunque no hay apenas estudios que evalúen la relación entre el seguimiento de la enfermedad y la CV, nos pareció interesante analizarla. En nuestro estudio no se observaron diferencias en las puntuaciones de CVRS en función del seguimiento de la enfermedad, ni con el cuestionario genérico, ni con el cuestionario específico.

Sin embargo, la relación entre la adherencia y el seguimiento ha sido más estudiada. Hall y col[62] observaron que existía relación entre la realización de un seguimiento estrecho en consultas y el mejor cumplimiento de la dieta. Estos mismos hallazgos fueron observados en el estudio piloto realizado por nuestro

grupo,[64,65] en el que el 94,5% de los encuestados acudían a revisiones médicas, siendo la frecuencia de seguimiento significativamente mayor en niños que en adultos, mientras que el número de trasgresiones era casi el doble en adultos que en niños. Aunque no podemos concluir que la causa única del mayor porcentaje de trasgresiones fuera el menor seguimiento, posiblemente sea un factor contribuyente.

Dado que la adherencia se ha relacionado con una mejor CV, se podría plantear que en los pacientes con un menor seguimiento la percepción de CV es peor, ya que posiblemente su adherencia al tratamiento es menor.

- **Quién de los padres contestó la encuesta y convivencia**

Con el cuestionario específico no se encontraron diferencias en función de quién contestaba la encuesta y con el genérico solo se observaron en la dimensión *relación con los padres*. Puntuaron significativamente peor los padres, pero la diferencia de puntuaciones fue de solo un punto por lo que no fue relevante, aunque hubiera sido esperable que las madres contestaran peor, por la condición inherente a su género.[158]

De forma anecdótica, las mejores puntuaciones de CV correspondieron al único caso en el que contestaron de forma conjunta padre y madre, con una diferencia de puntuaciones relevante respecto a la puntuación de los padres o madres cuando contestaban por separado (14,56 puntos). Se podría especular, como posible explicación a estos resultados que, en esta familia ambos padres están muy motivados por el bienestar de su hijo/a, por lo que es de suponer que el cumplimiento de la dieta es óptimo y, extrapolando los resultados a los de los niños que cumplen la dieta, su percepción de la CV probablemente es mejor. Este factor no ha sido apenas valorado en otros estudios de CVRS.

Respecto a la convivencia, no se encontraron diferencias con el cuestionario específico, salvo en la dimensión comunicación, en la que puntuó mejor el único niño que convivía con otro familiar que no era ni el padre ni la madre, que consideraba su CV como ”muy buena”. El grupo más numeroso lo constituían los niños que convivían con ambos padres (89%), que al igual que los que convivían solo con la madre, puntuaron su CV como “buena”. Sin embargo, los que vivían con

padre o madre y su pareja actual o bien si solo convivían con su padre la puntuaron como “neutra”. Con el cuestionario genérico no se encontraron diferencias en función de con quién convivían. No hemos encontrado otros estudios que evaluaran la CV en función de la convivencia.

- **Nivel de estudios y profesión de los padres**

Apenas se encontraron diferencias en función del nivel de estudios del padre o la madre, salvo en la dimensión tener EC en la que puntuaron mejor las madres con mejor nivel de estudios, e independientemente de su nivel de estudios, los padres puntuaron la CV de sus hijos como “buena” y las madres como “neutra”. Estas diferencias podrían atribuirse a que el género femenino en general puntúa peor la CV. [89,146,152,158]

Al utilizar el cuestionario genérico, la CVRS de los celíacos españoles no parece verse afectada por el nivel de estudios del padre, mientras que si se observaron diferencias según el nivel de estudios de la madre, puntuando mejor aquellas que tenían estudios universitarios en las dimensiones de bienestar físico y psicológico.

No hemos encontrado estudios que analicen la relación entre el nivel de estudios de los padres y la CV en los niños, sin embargo, en adultos Shah S y col,[56] observaron un mayor impacto negativo del tratamiento de la EC en los pacientes que no tenían estudios universitarios.

La relación entre la adherencia a la dieta y el nivel de estudios ha sido evaluada por algunos autores, [58,72,73] que observaron mejor adherencia en aquellos celíacos adultos con estudios universitarios, por lo que se podría especular que al igual que los celíacos adultos con mayor nivel de estudios tienen mejor percepción de su CV, los padres de niños celíacos con mayor nivel de estudios tengan mejor percepción de la CV de sus hijos. Este razonamiento podría explicar que en nuestro estudio puntúen mejor las madres con mayor nivel de estudios, tanto cuando contestan un cuestionario genérico como con uno específico.

No encontramos diferencias en función de profesión del padre o de la madre, ni con el cuestionario genérico ni con el cuestionario específico, ni hemos encontrado estudios que evalúen la relación de esta variable con la CVRS.

2.5.4.2. Modelos de regresión lineal mútiple

Al aplicar modelos de regresión múltiple para identificar las variables independientes que pudieran influir en la CVRS con el cuestionario específico, se observó que las variables demográficas no se relacionaban con la CVRS salvo el nivel de estudios de los padres, registrándose mejor CV en aquellos cuya madre tenía estudios universitarios. El género, que se había relacionado con la CV al realizar el análisis univariable, al hacer el estudio de regresión lineal no mostró tener relación.

Las variables clínicas sin embargo, se relacionaron en su mayoría con la CVRS, tal y como había ocurrido en el análisis univariable. Se asociaron con una peor CV el tiempo de evolución de enfermedad tras el diagnóstico menor de 4 años, las formas clínicas no clásicas, tener dificultades económicas y sociales y tener síntomas con las transgresiones. Se asociaron con una mejor CVRS la edad al diagnóstico menor de 2 años y la adherencia a la dieta.

Se encontró una peor percepción de CV en aquellos que presentaban dificultades con la dieta y una mejor percepción de CV en los que mostraban una buena adherencia a la dieta.

Con el cuestionario genérico, las variables independientemente asociadas con una peor CVRS fueron, la edad al cumplimentar la encuesta mayor de 12 años, el tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico menor de 4 años, tener las dificultades económicas y sociales en la dieta, y la presencia de síntomas con las transgresiones. Las variables asociadas con una mejor CVRS fueron el género masculino, el mayor nivel de estudios de la madre.

La edad al diagnóstico, la adherencia al tratamiento y quién contesta de los padres, que se habían relacionado con la CV al realizar el análisis univariable, no mostraron tener relación con la CVRS al realizar el estudio de regresión lineal.

Solo hubo tres variables que se relacionaron con la CVRS al utilizar ambos cuestionarios. Se observó una peor CV en los pacientes que tenían dificultades económicas y sociales y en los que presentaban síntomas con las transgresiones y una mejor CV en los niños cuya madre tenía un mayor nivel de estudios.

Hay que destacar que las variables clínicas, edad al diagnóstico, adherencia al tratamiento y forma de presentación clínica que se relacionaban de forma significativa con la CV al rellenar el cuestionario CDDUX no lo hacían cuando se utilizaba el cuestionario genérico. De la misma forma, las variables demográficas género y edad al rellenar la encuesta que se relacionaban significativamente con la CV al rellenar el cuestionario genérico, no lo hacían con el cuestionario específico. Se podría especular que el cuestionario específico detecta mejor las diferencias en la CVRS respecto a las variables clínicas y el genérico detecta mejor las diferencias respecto a las variables demográficas.

3.- FUTURAS LINEAS DE INVESTIGACION

En relación con los resultados de nuestro estudio, y de acuerdo a lo publicado por otros autores, se podrían estableces las siguientes lineas de investigación:

- Sería importante investigar con la versión española del cuestionario CDDUX, al igual que han realizado los autores argentinos, su implementación en nuestro medio y la satisfacción de padres, niños y profesionales de la salud con dicho cuestionario.

- Es necesario evaluar con la versión española del cuestionario CDDUX la estabilidad test-retest y la sensibilidad al cambio, valorando evolutivamente la CVRS en las distintas etapas de la vida del niño y adolescente.
- La realización del cuestionario al inicio del seguimiento y su repetición en el tiempo tras la aplicación de medidas de mejora, nos permitirá evaluar la efectividad de dichas medidas para solucionar aquellos problemas que afectan su CV.

- El cuestionario CDDUX deberia ser validado en otro grupo de niños celíacos que no pertenezcan a sociedades de celíacos, y que no tengan internet, para evaluar si la percepción de CVRS en un grupo de niños con un nivel socioeconómico diferente difiere de observada en el grupo de niños estudiado.

- Sería interesante realizar la adaptación al español del cuestionario específico de CVRS americano y poder aplicarlo en los niños celíacos de nuestro medio, ya que dicho cuestionario investiga otras implicaciones que puede tener el hecho de vivir con la EC, como son los problemas emocionales y sociales experimentados por los niños diagnosticados de esta enfermedad que no se evalúan con el cuestionario CDDUX.

- Se deben desarrollar herramientas o escalas de medida de la adherencia a la dieta, y de la presencia de síntomas G-I con las transgresiones, para evitar las interpretaciones subjetivas y permitir evaluar de forma rigurosa y objetiva la relación de estas variables con la CVRS.

Como reflexión final, nos gustaría señalar que es necesario concienciar a la sociedad de que la EC es un problema de salud y de que es necesario un mayor soporte al niño celíaco y sus familias por parte de las instituciones. Se debería facilitar la realización de la dieta fuera del entorno familiar, en locales y establecimientos públicos, como pueden ser los restaurantes, los hoteles, los institutos. Para conseguir este objetivo, debemos instar a las instituciones y organismos públicos a promover campañas de concienciación sobre la enfermedad para ayudar a mejorar la CV de los pacientes celiacos.

VI.- CONCLUSIONES

1.- El cuestionario específico CDDUX es un instrumento válido y fiable para valorar la CVRS de los niños celíacos de 8 a 18 años en nuestro medio.

2.- La percepción de CVRS de los niños celíacos de nuestro estudio y de sus padres al utilizar el cuestionario específico CDDUX es neutra cuando consideran vivir con la EC y no les afecta tener la enfermedad ni tener que hablar a otros de ella.

3.- La percepción de CVRS, cuando se utiliza el cuestionario genérico Kidscreen, es positiva en la mayoría de los aspectos generales de la vida, siendo los problemas que más les afectan los relacionados con los recursos económicos, la autonomía y la relación con los amigos y apoyo social.

4.- Con el cuestionario específico no se encontraron diferencias entre la percepción de CV de los niños y sus padres, sin embargo, con el cuestionario genérico los padres puntuaron peor en la mitad de las dimensiones, aunque las diferencias no fueron relevantes.

5.- Con nuestros resultados se podría establecer que el perfil del niño celíaco con peor CV, cuando se utiliza el cuestionario específico CDDUX, es el que tiene la forma no clásica de la enfermedad, el que presenta dificultades económicas y sociales en el cumplimiento de la dieta, el de menor tiempo de evolución de la enfermedad y aquel que tiene síntomas con las transgresiones. El paciente que tiene mejor CV es el diagnosticado con menos de dos años de edad y el que presenta una buena adherencia a la dieta.

6.- El perfil del niño celíaco con peor CV, cuando se utiliza el cuestionario genérico Kidscreen, es el del niño con más de 12 años al rellenar la encuesta, el de menor tiempo de evolución de la enfermedad tras el diagnóstico, el que presenta dificultades económicas y sociales para realizar la dieta y el que tiene síntomas con las transgresiones. El paciente con mejor CV es el de género masculino y aquel cuya madre tiene un mayor nivel de estudios.

7.- Con los dos cuestionarios se observa que los principales factores que afectan negativamente a la CVRS son la no adherencia a la dieta, tener dificultades para cumplirla y tener síntomas con las transgresiones.

8.- Existe una mala correlación entre el cuestionario específico CDDUX y el cuestionario genérico kidscreen, ya que valoran aspectos diferentes de la CVRS, siendo necesario utilizar ambos para una evaluación más completa de la CV.

9.-.El cuestionario genérico Kidscreen detecta diferencias en las variables demográficas género y edad al rellenar la encuesta, mientras que el específico detecta las diferencias en las variables clínicas, adherencia a la dieta, forma clínica de presentación y edad al diagnóstico.

10.- La percepción de CVRS de los niños celíacos varía dependiendo del medio en que se estudia. Con el cuestionario CDDUX, los niños celíacos españoles valoran su CVRS mejor que los niños holandeses y peor que los argentinos.

11.- La percepción de CVRS de los niños celíacos de nuestro estudio al utilizar el cuestionario genérico kidscreen es mejor que la de los niños españoles y europeos de población general y con enfermedades crónicas.

12.- Nuestros resultados sugieren que el correcto cumplimiento de la dieta es decisivo para que el paciente pueda conseguir una buena CV.

.

VII. ANEXOS

ANEXOS

1.- VERSION ESPAÑOLA CUESTIONARIO CDDUX

ANEXO 1.Cuestionario Dux de EC versión para padre/madre de niña

ANEXO 1.Cuestionario Dux de EC versión para padre/madre de niño

ANEXO 1.Cuestionario Dux de EC versión para chico/chica

2.- VERSION ESPAÑOLA CUESTIONARIO KIDSCREEN

ANEXO 4.Cuestionario kidscreen para padres.

ANEXO 5.Cuestionario kidscreen para niño/a y adolescentes.

ANEXO 1. Cuestionario Dux de EC versión para padre/madre de niña

Nos gustaría saber cómo se siente su hija estos días.

¿Podría indicarnos por favor cómo se siente su hija en distintas situaciones? Puede hacerlo señalando con un círculo en cada pregunta la cara que mejor describa los sentimientos de su hija. No hay respuestas equivocadas; se trata de lo que usted piensa sobre cómo se siente su hija.

Por favor, indique cómo se siente su hija últimamente	
1.	Cuando su hija piensa en alimentos que contienen gluten, se siente…
2.	Cuando en el colegio le dan un alimento que contiene gluten, lo encuentra…
3.	Al hablar de la enfermedad celíaca con otros de su edad, se siente…
4.	No poder comer de todo, le parece…
5.	Cuando alguien le ofrece un alimento que no puede comer, se siente…
6.	Cuando su hija tiene que explicar a otros qué es la enfermedad celíaca, se siente

Por favor, exprese cómo se ha sentido su hija últimamente.	
7.	Hablar acerca de la enfermedad celíaca, a su hija le parece …
8.	Tener que seguir una dieta toda la vida, a su hija le parece …
9.	Tener que estar pendiente de lo que come, a su hija le parece…
10.	Tener la enfermedad celíaca a su hija le parece …
11.	No poder comer lo que le apetezca como los demás, a su hija le parece…
12.	Seguir una dieta para su enfermedad celíaca, a su hija le parece …

¡Gracias por rellenar este cuestionario!

ANEXO 2. Cuestionario Dux de EC versión para padre/madre de niño

Nos gustaría saber cómo se siente su hijo estos días.

¿Podría indicarnos por favor cómo se siente su hijo en distintas situaciones? Puede hacerlo señalando con un círculo en cada pregunta la cara que mejor describa los sentimientos de su hijo. No hay respuestas equivocadas; se trata de lo que usted piensa sobre como se siente su hijo.

Por favor, indique cómo se siente su hijo últimamente.	
1.	Cuando su hijo piensa en alimentos que contienen gluten, se siente…
2.	Cuando en el colegio le dan un alimento que contiene gluten, lo encuentra…
3.	Al hablar de la enfermedad celíaca con otros de su edad, se siente…
4.	No poder comer de todo, le parece…
5.	Cuando alguien le ofrece un alimento que no puede comer, se siente…
6.	Cuando su hijo tiene que explicar a otros qué es la enfermedad celíaca, se siente

Por favor, exprese cómo se ha sentido su hijo últimamente.	
7.	Hablar acerca de la enfermedad celíaca, a su hijo le parece...
8.	Tener que seguir una dieta toda la vida, a su hijo le parece...
9.	Tener que estar pendiente de lo que come, a su hijo le parece...
10	Tener la enfermedad celíaca a su hijo le parece...
11.	No poder comer lo que le apetezca como los demás, a su hijo le parece...
12.	Seguir una dieta para su enfermedad celíaca, a su hijo le parece ...

¡Gracias por rellenar este cuestionario!

ANEXO 3. Cuestionario Dux de EC versión para chicos y chicas.

Nos gustaría saber cómo te sientes estos días.

¿Puedes indicar cómo te sientes en diferentes situaciones? Puedes hacerlo señalando con un círculo en cada pregunta la cara que te describe mejor.
No hay respuestas equivocadas; se trata de saber lo que sientes.

	Por favor indica cómo te sientes últimamente.
1.	Cuando pienso en alimentos que contienen gluten me siento…
2.	Cuando en el colegio me dan alimentos que contiene gluten, me parece…
3.	Hablar de mi enfermedad celíaca con gente de mi edad, me parece…
4.	No poder comer de todo me parece…
5.	Cuando alguien me ofrece alimentos que no puedo comer, me siento …
6.	Cuando tengo que explicar a otros qué es la enfermedad celíaca, me siento… …

	Por favor expresa cómo te sientes últimamente
7.	Hablar de la enfermedad celíaca, me resulta…
8.	Tener que seguir una dieta toda la vida, me parece…
9.	Tener que estar pendiente de lo que como, me parece…
10.	Tener la enfermedad celíaca es….
11.	No poder comer lo que quiero como los demás me parece…
12.	Seguir una dieta debido a mi enfermedad celíaca es…

¡Gracias por rellenar este cuestionario!

2.- VERSION ESPAÑOLA DEL CUESTIONARIO KIDSCREEN

ANEXO 4.Cuestionario kidscreen para padres.

KIDSCREEN-52

Estudio europeo de salud y bienestar
de niños/as y adolescentes

Cuestionario para padres

Apreciados/as madres, padres o tutores/as:

¿Cómo está el chico/a? ¿Cómo se siente? Esto es lo que queremos saber sobre él/ella.

Por favor, conteste las preguntas como mejor pueda, intentando que sus respuestas reflejen la perspectiva del chico/a. Cuando piense en la respuesta, por favor intente recordar la última semana, es decir, los últimos siete días.

Por favor, anote la fecha de hoy:

__ __ / __ __ / __ __ __ __
Día Mes Año

¿Quién rellena este cuestionario?

- ○ Madre
- ○ Padre
- ○ Madrastra / Pareja del padre
- ○ Padrastro / Pareja de la madre
- ○ Otro ¿Quién? _____

¿Cuándo nació el chico/a (el chico/a entrevistado/a)?

_____ _____ _____
Día Mes Año

¿Es una chica o un chico?

- ○ Chica
- ○ Chico

¿Cuánto mide el chico/a (sin zapatos)?

_____ centímetros

¿Cuánto pesa el chico/a (sin ropa)?

_____ kilogramos

1. Actividad física y salud del chico/a

En general, ¿cómo diría el chico/a que es su salud?

1

- ○ Excelente
- ○ Muy buena
- ○ Buena
- ○ Regular
- ○ Mala

Piense en la última semana...

	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
2 ¿El chico/a se ha sentido bien y en forma?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿El chico/a se ha sentido físicamente activo (por ejemplo, ha corrido, trepado, ido en bi	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
4 ¿El chico/a ha podido correr bien?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piense en la última semana...

	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
5 ¿El chico/a se ha sentido lleno/a de energía?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

2. Los sentimientos del chico/a

Piense en la última semana...

	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1 ¿El chico/a ha disfrutado de la vida?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2 ¿El chico/a se ha sentido contento/a de esta vivo/a?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿El chico/a se ha sentido satisfecho/a con su vida?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piense en la última semana...	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
4 ¿El chico/a ha estado de buen humor?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿El chico/a se ha sentido alegre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿El chico/a se ha divertido?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

3. Estado de ánimo

Piense en la última semana...	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿El chico/a ha tenido la sensación de hacerl todo mal?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿El chico/a se ha sentido triste?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿El chico/a se ha sentido tan mal que no qu hacer nada?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿El chico/a ha tenido la sensación de que to en su vida sale mal?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿El chico/a se ha sentido harto/a?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿El chico/a se ha sentido solo/a?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
7 ¿El chico/a se ha sentido bajo presión?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

4. Sobre si mismo

Piense en la última semana...	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿El chico/a ha estado contento/a con su forr de ser?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿El chico/a ha estado contento/a con su ropa	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Al chico/a le ha preocupado su aspecto?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿El chico/a ha tenido envidia del aspecto de otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Al chico/a le gustaría cambiar alguna parte su cuerpo?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

5. El tiempo libre del chico/a

Piense en la última semana...	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿El chico/a ha tenido suficiente tiempo para él/ella?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿El chico/a ha podido hacer las cosas que quería en su tiempo libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿El chico/a ha tenido suficientes oportunida de estar al aire libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿El chico/a ha tenido suficiente tiempo de v a sus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿El chico/a ha podido elegir qué hacer en su tiempo libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

6. Vida familiar

Piense en la última semana...

		Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1	¿El chico/a se ha sentido comprendido/a po sus padres?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2	¿El chico/a se ha sentido querido/a por sus padres?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piense en la última semana...

		Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
3	¿El chico/a se ha sentido feliz en casa?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4	¿Los padres del chico/a han tenido suficient tiempo para él/ella?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5	¿Los padres del chico/a le han tratado de fo justa?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6	¿El chico/a ha podido hablar con sus padres cuando ha querido?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

7. Asuntos económicos

Piense en la última semana...

		Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1	¿El/la chico/a ha tenido suficiente dinero pa hacer lo mismo que sus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2	¿El/la chico/a cree que ha tenido suficiente dinero para sus gastos?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

Piense en la última semana...

		Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
3	¿El chico/a cree que tiene suficiente dinero para hacer cosas con sus amigos/as?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○

8. Amigos/as

Piense en la última semana...

	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿El chico/a ha pasado tiempo con sus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿ El chico/a ha hecho cosas con otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿El chico/a se ha divertido con sus amigos/a	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿El chico/a y sus amigos/as se han ayudado unos a otros?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿El chico/a ha podido hablar de todo con su amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿El chico/a ha podido confiar en sus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

9. El colegio

Piense en la última semana...

	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1 ¿El chico/a se ha sentido feliz en el colegio?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2 ¿Al chico/a le ha ido bien en el colegio?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿El chico/a se ha sentido satisfecho con sus profesores/as?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamente ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piense en la última semana...

	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
4 ¿El chico/a ha podido prestar atención?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Al chico/a le ha gustado ir al colegio?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

		Nunca	Casi nunca	Algunas vec	Casi siempr	Siempre
6	¿El chico/a se ha llevado bien con sus profesores/as?	○	○	○	○	○

10. La relación del chico/a con los demás

Piense en la última semana...

		Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1	¿El chico/a ha tenido miedo de otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2	¿Se han reído del chico/a otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3	¿Al chico/a le han intimidado o amenazado otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

¡Muchas gracias por su participación!

ANEXO 5. Cuestionario kidscreen para niños/niñas y adolescentes.

KIDSCREEN-52

Estudio europeo de salud y bienestar de niños/as y adolescentes

Cuestionario para chicos y chicas de 8 a 18 años

¡Hola a todos!

¿Cómo estás? ¿Cómo te sientes? Esto es lo que queremos saber sobre ti.

Por favor, lee cada pregunta atentamente Cuando pienses en tu respuesta, por favor intenta recordar la última semana, es decir, los últimos siete días. ¿Cuál es la respuesta que primero se te ocurre? Escoge la opción que creas mejor para ti y escribe una cruz en ella.

Recuerda: Esto no es un examen. No hay respuestas correctas o incorrectas. Pero es importante que contestes todas las preguntas que puedas y que podamos ver con claridad las cruces.

No tienes que enseñar tus respuestas a nadie. Nadie más, aparte de nosotros, verá tus respuestas; serán confidenciales.

Por favor, anota la fecha de hoy:

__ __ / __ __ / __ __ __ __
Día Mes Año

¿Eres chica o chico?

○ Chica
○ Chico

¿Cuál es tu fecha de nacimiento?

_____ _____ _____
Día Mes Año

¿Tienes alguna discapacidad, enfermedad o problema médico crónico?

○ No
○ Sí ¿Cuál? _____

1. Actividad física y salud

En general, ¿cómo dirías que es tu salud?

1

- ○ Excelente
- ○ Muy buena
- ○ Buena
- ○ Regular
- ○ Mala

Piensa en la última semana…

	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
2 ¿Te has sentido bien y en forma?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿Te has sentido físicamente activo/a (por ejemplo, has corrido, trepado, ido en bici)?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
4 ¿Has podido correr bien?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piensa en la última semana…

	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
5 ¿Te has sentido lleno/a de energía?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

2. Tus sentimientos

Piensa en la última semana…

	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1 ¿Has disfrutado de la vida?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2 ¿Te has sentido contento/a de estar vivo/a?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿Te has sentido satisfecho/a con tu vida?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
4 ¿Has estado de buen humor?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Te has sentido alegre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿Te has divertido?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

3. Estado de ánimo

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has tenido la sensación de hacerlo todo m	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Te has sentido triste?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Te has sentido tan mal que no querías hace nada?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿Has tenido la sensación de que todo en tu vida sale mal?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Te has sentido harto/a?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿Te has sentido solo/a?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
7 ¿Te has sentido bajo presión?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

4. Sobre ti

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has estado contento/a con tu forma de ser?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Has estado contento/a con tu ropa?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Te ha preocupado tu aspecto?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿Has tenido envidia del aspecto de otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Hay alguna parte de tu cuerpo que te gusta cambiar?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

5. Tu tiempo libre

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has tenido suficiente tiempo para ti?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Has podido hacer las cosas que querías en tiempo libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Has tenido suficientes oportunidades de es al aire libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿Has tenido suficiente tiempo de ver a los amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Has podido elegir qué hacer en tu tiempo libre?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

6. Tu vida familiar

Piensa en la última semana…	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1 ¿Tus padres te han entendido?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2 ¿Te has sentido querido/a por tus padres?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
3 ¿Te has sentido feliz en casa?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿Tus padres han tenido suficiente tiempo pa ti?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Tus padres te han tratado de forma justa?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿Has podido hablar con tus padres cuando h querido?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

7. Asuntos económicos

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has tenido suficiente dinero para hacer lo mismo que tus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Has tenido suficiente dinero para tus gasto	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

Piensa en la última semana…	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
3 ¿Tienes suficiente dinero para hacer cosas c tus amigos/as?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○

8. Tus amigos/as

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has pasado tiempo con tus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Has hecho cosas con otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Te has divertido con tus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
4 ¿Tú y tus amigos/as os habéis ayudado unos a otros/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Has podido hablar de todo con tus amigos/	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿Has podido confiar en tus amigos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

9. El colegio

Piensa en la última semana…	Nada	Un poco	Moderada-m	Mucho	Muchísim
1 ¿Te has sentido feliz en el colegio?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
2 ¿Te ha ido bien en el colegio?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○
3 ¿Te has sentido satisfecho/a con tus profesores/as?	Nada ○	Un poco ○	Moderadamen ○	Mucho ○	Muchísimo ○

Piensa en la última semana…	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
4 ¿Has podido prestar atención?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
5 ¿Te ha gustado ir al colegio?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○
6 ¿Te has llevado bien con tus profesores/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vec ○	Casi siempr ○	Siempre ○

10. Tú y los demás

Piensa en la última semana…

	Nunca	Casi nunc	Algunas ve	Casi siemp	Siempre
1 ¿Has tenido miedo de otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
2 ¿Se han reído de ti otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○
3 ¿Te han intimidado o amenazado otros chicos/as?	Nunca ○	Casi nunca ○	Algunas vece ○	Casi siempr ○	Siempre ○

¡Muchas gracias por tu participación!

VIII. BIBLIOGRAFÍA

1. Husby S, Koletzko S, Korponay-Szabó IR, Mearin ML, Phillips A, Shamir R, et al. European Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology, and Nutrition guidelines for the diagnosis of coeliac disease. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2012 Jan;54(1):136–60.

2. Maki M, Collin P. Celiac disease. Lancet. 1997;349(9067):1755–9.

3. Ertekin V, Selimoğlu MA, Kardaş F, Aktaş E. Prevalence of celiac disease in Turkish children. J Clin Gastroenterol. 2005 Sep;39(8):689–91.

4. Ben Hariz M, Kallel-Sellami M, Kallel L, Lahmer A, Halioui S, Bouraoui S, et al. Prevalence of celiac disease in Tunisia: mass-screening study in schoolchildren. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2007 Aug;19(8):687–94.

5. Catassi C, Fabiani E, Rätsch IM, Coppa GV, Giorgi PL, Pierdomenico R, et al. The coeliac iceberg in Italy. A multicentre antigliadin antibodies screening for coeliac disease in school-age subjects. Acta Paediatr Suppl. 1996 May;412:29–35.

6. Mustalahti K, Catassi C, Reunanen A, Fabiani E, Heier M, McMillan S, et al. The prevalence of celiac disease in Europe: results of a centralized, international mass screening project. Ann Med. 2010 Dec;42(8):587–95.

7. Ivarsson A, Myléus A, Norström F, van der Pals M, Rosén A, Högberg L, et al. Prevalence of childhood celiac disease and changes in infant feeding. Pediatrics. 2013 Mar;131(3):e687–94.

8. Riestra S, Fernández E, Rodrigo L, Garcia S, Ocio G. Prevalence of Coeliac disease in the general population of northern Spain. Strategies of serologic screening. Scand J Gastroenterol. 2000 Apr;35(4):398–402.

9. Cilleruelo Pascual ML, Román Riechmann E, Jiménez Jiménez J, Rivero Martín MJ, Barrio Torres J, Castaño Pascual A, et al. Enfermedad celiaca silente: explorando el iceberg en población escolar. An Esp Pediatr. 2002 Oct;57(4):321–6.

10. García Novo MD, Garfia C, Acuña Quirós MD, Asensio J, Zancada G, Barrio Gutiérrez S, et al. Prevalencia de la enfermedad celíaca en donantes de sangre aparentemente sanos en la Comunidad Autónoma de Madrid. Rev Esp Enferm Dig. 2007 Jun;99(6):337–42.

11. Castaño L, Blarduni E, Ortiz L, Núñez J, Bilbao JR, Rica I, et al. Prospective population screening for celiac disease: high prevalence in the first 3 years of life. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2004 Jul;39(1):80–4.

12. Cilleruelo ML, Roman-Riechmann E, Sanchez-Valverde F, Donat E, Manuel-Ramos J, Martín-Orte E, et al. Spanish national registry of celiac disease: incidence and clinical presentation. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2014 Oct;59(4):522–6.

13. Jabri B, Kasarda DD, Green PHR. Innate and adaptive immunity: the yin and yang of celiac disease. Immunol Rev. 2005 Aug;206:219–31.

14. Ciccocioppo R, Di Sabatino A, Corazza GR. The immune recognition of gluten in coeliac disease. Clin Exp Immunol. 2005 Jun;140(3):408–16.

15. Kagnoff MF. Overview and pathogenesis of celiac disease. Gastroenterology. 2005 Apr;128(4 Suppl 1):S10–8.

16. Monsuur AJ, Wijmenga C. Understanding the molecular basis of celiac disease: what genetic studies reveal. Ann Med. 2006;38(8):578–91.

17. Van Belzen MJ, Koeleman BPC, Crusius JBA, Meijer JWR, Bardoel AFJ, Pearson PL, et al. Defining the contribution of the HLA region to cis DQ2-positive coeliac disease patients. Genes Immun. 2004 May;5(3):215–20.

18. Mearin ML, Biemond I, Peña AS, Polanco I, Vazquez C, Schreuder GT, et al. HLA-DR phenotypes in Spanish coeliac children: their contribution to the understanding of the genetics of the disease. Gut. 1983 Jun;24(6):532–7.

19. Karell K, Louka AS, Moodie SJ, Ascher H, Clot F, Greco L, et al. HLA types in celiac disease patients not carrying the DQA1*05-DQB1*02 (DQ2) heterodimer: results from the European Genetics Cluster on Celiac Disease. Hum Immunol. 2003 Apr;64(4):469–77.

20. Catassi C, Kryszak D, Louis-Jacques O, Duerksen DR, Hill I, Crowe SE, et al. Detection of Celiac disease in primary care: a multicenter case-finding study in North America. Am J Gastroenterol. 2007 Jul;102(7):1454–60.

21. Ludvigsson JF, Leffler DA, Bai JC, Biagi F, Fasano A, Green PHR, et al. The Oslo definitions for coeliac disease and related terms. Gut. 2013 Jan;62(1):43–52.

22. Ravikumara M, Tuthill DP, Jenkins HR. The changing clinical presentation of coeliac disease. Arch Dis Child. 2006 Dec;91(12):969–71.

23. Garampazzi A, Rapa A, Mura S, Capelli A, Valori A, Boldorini R, et al. Clinical pattern of celiac disease is still changing. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2007 Nov;45(5):611–4.

24. Roma E, Panayiotou J, Karantana H, Constantinidou C, Siakavellas SI, Krini M, et al. Changing pattern in the clinical presentation of pediatric celiac disease: a 30-year study. Digestion. 2009;80(3):185–91.

25. McGowan KE, Castiglione DA, Butzner JD. The changing face of childhood celiac disease in north america: impact of serological testing. Pediatrics. 2009 Dec;124(6):1572–8.

26. Bolotin D, Petronic-Rosic V. Dermatitis herpetiformis. Part I. Epidemiology, pathogenesis, and clinical presentation. J Am Acad Dermatol. 2011 Jun;64(6):1017–24; 1025–6.

27. Caproni M, Antiga E, Melani L, Fabbri P, Italian Group for Cutaneous Immunopathology. Guidelines for the diagnosis and treatment of dermatitis herpetiformis. J Eur Acad Dermatol Venereol. 2009 Jun;23(6):633–8.

28. Viljamaa M, Kaukinen K, Huhtala H, Kyrönpalo S, Rasmussen M, Collin P. Coeliac disease, autoimmune diseases and gluten exposure. Scand J Gastroenterol. 2005 Apr;40(4):437–43.

29. Fasano A, Berti I, Gerarduzzi T, Not T, Colletti RB, Drago S, et al. Prevalence of celiac disease in at-risk and not-at-risk groups in the United States: a large multicenter study. Arch Intern Med. 2003 Feb 10;163(3):286–92.

30. Unsworth DJ, Walker-Smith JA, Holborow EJ. Gliadin and reticulin antibodies in childhood coeliac disease. Lancet. 1983 Apr 16;1(8329):874–5.

31. Chorzelski TP, Beutner EH, Sulej J, Tchorzewska H, Jablonska S, Kumar V, et al. IgA anti-endomysium antibody. A new immunological marker of dermatitis herpetiformis and coeliac disease. Br J Dermatol. 1984 Oct;111(4):395–402.

32. Amara W, Husebekk A. Improved method for serological testing in celiac disease--IgA anti-endomysium antibody test: a comparison between monkey oesophagus and human umbilical cord as substrate in indirect immunofluorescence test. Scand J Clin Lab Invest. 1998 Nov;58(7):547–54.

33. Dieterich W, Ehnis T, Bauer M, Donner P, Volta U, Riecken EO, et al. Identification of tissue transglutaminase as the autoantigen of celiac disease. Nat Med. 1997 Jul;3(7):797–801.

34. Van Meensel B, Hiele M, Hoffman I, Vermeire S, Rutgeerts P, Geboes K, et al. Diagnostic accuracy of ten second-generation (human) tissue transglutaminase antibody assays in celiac disease. Clin Chem. 2004 Nov;50(11):2125–35.

35. Schwertz E, Kahlenberg F, Sack U, Richter T, Stern M, Conrad K, et al. Serologic assay based on gliadin-related nonapeptides as a highly sensitive and specific diagnostic aid in celiac disease. Clin Chem. 2004 Dec;50(12):2370–5.

36. Basso D, Guariso G, Fogar P, Meneghel A, Zambon C-F, Navaglia F, et al. Antibodies against synthetic deamidated gliadin peptides for celiac disease diagnosis and follow-up in children. Clin Chem. 2009 Jan;55(1):150–7.

37. Kurppa K, Lindfors K, Collin P, Saavalainen P, Partanen J, Haimila K, et al. Antibodies against deamidated gliadin peptides in early-stage celiac disease. J Clin Gastroenterol. 2011 Sep;45(8):673–8.

38. Agardh D. Antibodies against synthetic deamidated gliadin peptides and tissue transglutaminase for the identification of childhood celiac disease. Clin Gastroenterol Hepatol. 2007 Nov;5(11):1276–81.

39. Giersiepen K, Lelgemann M, Stuhldreher N, Ronfani L, Husby S, Koletzko S, et al. Accuracy of diagnostic antibody tests for coeliac disease in children: summary of an evidence report. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2012 Feb;54(2):229–41.

40. Marsh MN. Grains of truth: evolutionary changes in small intestinal mucosa in response to environmental antigen challenge. Gut. 1990 Jan;31(1):111–4.

41. Marsh MN. Gluten, major histocompatibility complex, and the small intestine. A molecular and immunobiologic approach to the spectrum of gluten sensitivity ('celiac sprue'). Gastroenterology. 1992 Jan;102(1):330–54.

42. Oberhuber G, Granditsch G, Vogelsang H. The histopathology of coeliac disease: time for a standardized report scheme for pathologists. Eur J Gastroenterol Hepatol. 1999 Oct;11(10):1185–94.

43. Biagi F, Bianchi PI, Campanella J, Badulli C, Martinetti M, Klersy C, et al. The prevalence and the causes of minimal intestinal lesions in patients complaining of symptoms suggestive of enteropathy: a follow-up study. J Clin Pathol. 2008 Oct;61(10):1116–8.

44. Ravelli A, Villanacci V, Monfredini C, Martinazzi S, Grassi V, Manenti S. How patchy is patchy villous atrophy?: distribution pattern of histological lesions in the duodenum of children with celiac disease. Am J Gastroenterol. 2010 Sep;105(9):2103–10.

45. Levinson-Castiel R, Hartman C, Morgenstern S, Avitzur Y, Hirsch A, Rosenbach Y, et al. The role of duodenal bulb biopsy in the diagnosis of celiac disease in children. J Clin Gastroenterol. 2011 Jan;45(1):26–9.

46. Kupper C. Dietary guidelines and implementation for celiac disease. Gastroenterology. 2005 Apr;128(4 Suppl 1):S121–7.

47. Troncone R, Auricchio R, Granata V. Issues related to gluten-free diet in coeliac disease. Curr Opin Clin Nutr Metab Care. 2008 May;11(3):329–33.

48. Garsed K, Scott BB. Can oats be taken in a gluten-free diet? A systematic review. Scand J Gastroenterol. 2007 Feb;42(2):171–8.

49. Codex Alimentarius Comission. Codex Standard for wheat protein products including wheat gluten. Codex Stan, 163-1987. Codex Stan. 1987;163.

50. Errichiello S, Esposito O, Di Mase R, Camarca ME, Natale C, Limongelli MG, et al. Celiac disease: predictors of compliance with a gluten-free diet in adolescents and young adults. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2010 Jan;50(1):54–60.

51. Holmes GK, Prior P, Lane MR, Pope D, Allan RN. Malignancy in coeliac disease--effect of a gluten free diet. Gut. 1989 Mar;30(3):333–8.

52. Green PHR, Fleischauer AT, Bhagat G, Goyal R, Jabri B, Neugut AI. Risk of malignancy in patients with celiac disease. Am J Med. 2003 Aug 15;115(3):191–5.

53. Catassi C, Fabiani E, Corrao G, Barbato M, De Renzo A, Carella AM, et al. Risk of non-Hodgkin lymphoma in celiac disease. JAMA. 2002 Mar 20;287(11):1413–9.

54. Olén O, Askling J, Ludvigsson JF, Hildebrand H, Ekbom A, Smedby KE. Coeliac disease characteristics, compliance to a gluten free diet and risk of lymphoma by subtype. Dig Liver Dis. 2011 Nov;43(11):862–8.

55. Pietzak MM. Follow-up of patients with celiac disease: achieving compliance with treatment. Gastroenterology. 2005 Apr;128(4 Suppl 1):S135–41.

56. Shah S, Akbari M, Vanga R, Kelly CP, Hansen J, Theethira T, et al. Patient perception of treatment burden is high in celiac disease compared with other common conditions. Am J Gastroenterol. 2014 Sep;109(9):1304–11.

57. MacCulloch K, Rashid M. Factors affecting adherence to a gluten-free diet in children with celiac disease. Paediatr Child Health. 2014 Jun;19(6):305–9.

58. Barratt SM, Leeds JS, Sanders DS. Quality of life in Coeliac Disease is determined by perceived degree of difficulty adhering to a gluten-free diet, not the level of dietary adherence ultimately achieved. J Gastrointestin Liver Dis. 2011 Sep;20(3):241–5.

59. Lee A, Newman JM. Celiac diet: its impact on quality of life. J Am Diet Assoc. 2003 Nov;103(11):1533–5.

60. Fabiani E, Taccari LM, Rätsch IM, Di Giuseppe S, Coppa GV, Catassi C. Compliance with gluten-free diet in adolescents with screening-detected celiac disease: a 5-year follow-up study. J Pediatr. 2000 Jun;136(6):841–3.

61. Olsson C, Hörnell A, Ivarsson A, Sydner YM. The everyday life of adolescent coeliacs: issues of importance for compliance with the gluten-free diet. J Hum Nutr Diet. 2008 Aug;21(4):359–67.

62. Hall NJ, Rubin G, Charnock A. Systematic review: adherence to a gluten-free diet in adult patients with coeliac disease. Aliment Pharmacol Ther. 2009 Aug 15;30(4):315–30.

63. Leffler DA, Dennis M, Edwards George JB, Jamma S, Magge S, Cook EF, et al. A simple validated gluten-free diet adherence survey for adults with celiac disease. Clin Gastroenterol Hepatol. 2009 May;7(5):530–6, 536.e1–2.

64. Barrio Torres J, Román Riechmann E, Cilleruelo Pascual ML, Márquez Infante M, Esteban Luna B, Fernández Alvárez A. Evaluación de la repercusión de la dieta sin gluten en los Hábitos dietéticos y calidad de vida de un grupo de pacientes celíacos. Abstracts: XVI Congreso de la Sociedad Española de Gastroenterología, Hepatología y Nutrición, 21-23 Mayo 2009, Valladolid, España. Valladolid: Ergon; 2009. p. 95.

65. Barrio Torres J, Román Riechmann E, Cilleruelo Pascual ML, Márquez Infante M, Esteban Luna B, Fernández Alvarez A. Evaluación de la repercusión psicosocial de la dieta sin gluten en un grupo de pacientes celíacos. Abstracts: 2º Congreso de la

Sociedad Española de Enfermedad Celíaca, 25-27 noviembre 2010, Tenerife, España. Tenerife.: Ergon; 2010.

66. Rashid M, Cranney A, Zarkadas M, Graham ID, Switzer C, Case S, et al. Celiac disease: evaluation of the diagnosis and dietary compliance in Canadian children. Pediatrics. 2005 Dec;116(6):e754–9.

67. Arnone J, Fitzsimons V. Adolescents with celiac disease: a literature review of the impact developmental tasks have on adherence with a gluten-free diet. Gastroenterol Nurs. 2012 Aug;35(4):248–54.

68. Greco L, Mayer M, Ciccarelli G, Troncone R, Auricchio S. Compliance to a gluten-free diet in adolescents, or "what do 300 coeliac adolescents eat every day?." Ital J Gastroenterol Hepatol. 1997 Aug;29(4):305–10.

69. Hopman EGD, le Cessie S, von Blomberg BME, Mearin ML. Nutritional management of the gluten-free diet in young people with celiac disease in The Netherlands. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2006 Jul;43(1):102–8.

70. Mayer M, Greco L, Troncone R, Auricchio S, Marsh MN. Compliance of adolescents with coeliac disease with a gluten free diet. Gut. 1991 Aug;32(8):881–5.

71. Leffler DA, Edwards-George J, Dennis M, Schuppan D, Cook F, Franko DL, et al. Factors that influence adherence to a gluten-free diet in adults with celiac disease. Dig Dis Sci. 2008 Jun;53(6):1573–81.

72. Ciacci C, Cirillo M, Cavallaro R, Mazzacca G. Long-term follow-up of celiac adults on gluten-free diet: prevalence and correlates of intestinal damage. Digestion. 2002;66(3):178–85.

73. Ciacci C, D'Agate C, De Rosa A, Franzese C, Errichiello S, Gasperi V, et al. Self-rated quality of life in celiac disease. Dig Dis Sci. 2003 Nov;48(11):2216–20.

74. Högberg L, Grodzinsky E, Stenhammar L. Better dietary compliance in patients with coeliac disease diagnosed in early childhood. Scand J Gastroenterol. 2003 Jul;38(7):751–4.

75. Vahedi K, Mascart F, Mary JY, Laberenne JE, Bouhnik Y, Morin MC, et al. Reliability of antitransglutaminase antibodies as predictors of gluten-free diet compliance in adult celiac disease. Am J Gastroenterol. 2003 May;98(5):1079–87.

76. Gremigni P, Di Meo C, Ricci Bitti P. Illness representation, wellbeing and adherence to diet in adult celiac patients. 19th Annual Conference of the European Health Psychology Society. Abingdon: Taylor & Francis; 2005. p. 101.

77. Butterworth JR, Banfield LM, Iqbal TH, Cooper BT. Factors relating to compliance with a gluten-free diet in patients with coeliac disease: comparison of white Caucasian and South Asian patients. Clin Nutr. 2004 Oct;23(5):1127–34.

78. Lamontagne P, West GE, Galibois I. Quebecers with celiac disease: analysis of dietary problems. Can J Diet Pract Res. 2001;62(4):175–81.

79. Wylie C, Geldart S, Winwood P. Dietitian-led coeliac clinic: A successful change in working practice in modern healthcare. Gastroenterol Today. 2005;15:11–2.

80. Mustalahti K, Lohiniemi S, Collin P, Vuolteenaho N, Laippala P, Mäki M. Gluten-free diet and quality of life in patients with screen-detected celiac disease. Eff Clin Pract. 2002 Jun;5(3):105–13.

81. Viljamaa M, Collin P, Huhtala H, Sievänen H, Mäki M, Kaukinen K. Is coeliac disease screening in risk groups justified? A fourteen-year follow-up with special focus on compliance and quality of life. Aliment Pharmacol Ther. 2005 Aug 15;22(4):317–24.

82. Johnston SD, Rodgers C, Watson RG. Quality of life in screen-detected and typical coeliac disease and the effect of excluding dietary gluten. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2004 Nov;16(12):1281–6.

83. Häuser W, Gold J, Stein J, Caspary WF, Stallmach A. Health-related quality of life in adult coeliac disease in Germany: results of a national survey. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2006 Jul;18(7):747–54.

84. Jordan NE, Li Y, Magrini D, Simpson S, Reilly NR, Defelice AR, et al. Development and validation of a celiac disease quality of life instrument for North American children. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2013 Oct;57(4):477–86.

85. Fera T, Cascio B, Angelini G, Martini S, Guidetti CS. Affective disorders and quality of life in adult coeliac disease patients on a gluten-free diet. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2003 Dec;15(12):1287–92.

86. Green PHR, Stavropoulos SN, Panagi SG, Goldstein SL, Mcmahon DJ, Absan H, et al. Characteristics of adult celiac disease in the USA: results of a national survey. Am J Gastroenterol. 2001 Jan;96(1):126–31.

87. Van Doorn RK, Winkler LMF, Zwinderman KH, Mearin ML, Koopman HM. CDDUX: a disease-specific health-related quality-of-life questionnaire for children with celiac disease. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2008 Aug;47(2):147–52.

88. Hallert C, Grännö C, Grant C, Hultén S, Midhagen G, Ström M, et al. Quality of life of adult coeliac patients treated for 10 years. Scand J Gastroenterol. 1998 Sep;33(9):933–8.

89. Hallert C, Grännö C, Hultén S, Midhagen G, Ström M, Svensson H, et al. Living with coeliac disease: controlled study of the burden of illness. Scand J Gastroenterol. 2002 Jan;37(1):39–42.

90. Häuser W, Stallmach A, Caspary WF, Stein J. Predictors of reduced health-related quality of life in adults with coeliac disease. Aliment Pharmacol Ther. 2007 Mar 1;25(5):569–78.

91. Pouchot J, Despujol C, Malamut G, Ecosse E, Coste J, Cellier C. Validation of a French version of the quality of life “Celiac Disease Questionnaire.” PLoS ONE. 2014;9(5):e96346.

92. Wagner G, Berger G, Sinnreich U, Grylli V, Schober E, Huber W-D, et al. Quality of life in adolescents with treated coeliac disease: influence of compliance and age at diagnosis. J Pediatr Gastroenterol Nutr. 2008 Nov;47(5):555–61.

93. Whitaker JKH, West J, Holmes GKT, Logan RFA. Patient perceptions of the burden of coeliac disease and its treatment in the UK. Aliment Pharmacol Ther. 2009 May 15;29(10):1131–6.

94. Ukkola A, Mäki M, Kurppa K, Collin P, Huhtala H, Kekkonen L, et al. Patients’ experiences and perceptions of living with coeliac disease - implications for optimizing care. J Gastrointestin Liver Dis. 2012 Mar;21(1):17–22.

95. Sverker A, Hensing G, Hallert C. “Controlled by food”- lived experiences of coeliac disease. J Hum Nutr Diet. 2005 Jun;18(3):171–80.

96. Van Koppen EJ, Schweizer JJ, Csizmadia CGDS, Krom Y, Hylkema HB, van Geel AM, et al. Long-term health and quality-of-life consequences of mass screening for childhood celiac disease: a 10-year follow-up study. Pediatrics. 2009 Apr;123(4):e582–8.

97. Biagetti C, Naspi G, Catassi C. Health-related quality of life in children with celiac disease: a study based on the Critical Incident Technique. Nutrients. 2013 Nov;5(11):4476–85.

98. Skjerning H, Mahony RO, Husby S, DunnGalvin A. Health-related quality of life in children and adolescents with celiac disease: patient-driven data from focus group interviews. Qual Life Res. 2014 Aug;23(6):1883–94.

99. Byström I-M, Hollén E, Fälth-Magnusson K, Johansson A. Health-related quality of life in children and adolescents with celiac disease: from the perspectives of children and parents. Gastroenterol Res Pract. 2012;2012:986475.

100. Nordyke K, Norström F, Lindholm L, Stenlund H, Rosén A, Ivarsson A. Health-related quality of life in adolescents with screening-detected celiac disease, before and one year after diagnosis and initiation of gluten-free diet, a prospective nested case-referent study. BMC Public Health. 2013;13:142.

101. Myléus A, Petersen S, Carlsson A, Hammarroth S, Högberg L, Ivarsson A. Health-related quality of life is not impaired in children with undetected as well as diagnosed celiac disease: a large population based cross-sectional study. BMC Public Health. 2014;14:425.

102. Constitution of the World Health Organitation. Geneva (Switzerland): World Health Organitation; 1948.

103. Bullinger M. Quality-of-life-definition, conceptualization and implications-a methodologists view. Theor Surg. 1991;6(3):143–8.

104. The World Health Organization Quality of Life assessment (WHOQOL): position paper from the World Health Organization. Soc Sci Med. 1995 Nov;41(10):1403–9.

105. Natapoff JN. Children's views of health: a developmental study. Am J Public Health. 1978 Oct;68(10):995–1000.

106. Hergenrather JR, Rabinowitz M. Age-related differences in the organization of children's knowledge of illness. Developmental Psychology. 1991;27(6):952–9.

107. Neinstein LS. Salud del adolescente. Barcelona: J.R. Prous; 1991. 926 p.

108. Guyatt GH, Feeny DH, Patrick DL. Measuring health-related quality of life. Ann Intern Med. 1993 Apr 15;118(8):622–9.

109. Patrick DL, Deyo RA. Generic and disease-specific measures in assessing health status and quality of life. Med Care. 1989 Mar;27(3 Suppl):S217–32.

110. Jenney ME, Campbell S. Measuring quality of life. Arch Dis Child. 1997 Oct;77(4):347–50.

111. Levi R, Drotar D. Critical issues and needs in health-related quality of life assessment of children and adolescents with chronic health condition. Measuring health-related quality of life in children and adolescents Implications for research and practice. Hillsdale, New Jersey: Lawrence Erlbaum Associates; 1998. p. 3–24.

112. Borgaonkar MR, Irvine EJ. Quality of life measurement in gastrointestinal and liver disorders. Gut. 2000 Sep;47(3):444–54.

113. Yacavone RF, Locke GR, Provenzale DT, Eisen GM. Quality of life measurement in gastroenterology: what is available? Am J Gastroenterol. 2001 Feb;96(2):285–97.

114. Juniper EF, Guyatt GH, Jaeschke R. How to develop and validate a new health-related quality of life instrument. In: Spiker B, editor. Quality of Life and Pharmaoeconomics in Clinical Trials. 2nd ed. Philadelphia: Lippincott-Raven; 1996. p. 49–56.

115. Streiner D L, Norman GR. Health measurement scales: a practical guide to their development and use. Oxford: Oxford University Press; 1998.

116. Serra-Sutton V, Herdman M, Rajmil L, Santed R, Ferrer M, Siméoni MC, et al. Adaptación transcultural al español del cuestionario Vécu et Santé Perçue de l'Adolescent (VSP-A):una medida genérica de calidad de vida para adolescentes. Rev Esp Salud Publica. 2002 Dec;76(6):701–12.

117. 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. Expert Rev Pharmacoecon Outcomes Res. 2005 Jun;5(3):353–64.

118. Hays RD, Anderson R, Revicki D. Psychometric considerations in evaluating health-related quality of life measures. Qual Life Res. 1993 Dec;2(6):441–9.

119. Cronbach LJ. Coefficient alpha and the internal structure of tests. Psychometrika. 1951;16:279–334.

120. Prieto L, Lamarca R, Casado A. La evaluación de la fiabilidad en las observaciones clínicas: el coeficiente de correlación intraclase. Med Clin (Barc). 1998 Feb 7;110(4):142–5.

121. Skevington SM, Sartorius N, Amir M, others. Developing methods for assessing quality of life in different cultural settings. Social psychiatry and psychiatric epidemiology. 2004;39(1):1–8.

122. The WHOQOL Group. The development of the World Health Organization Quality of Life Assessment Instrument(the WHOQoL). Quality of Life Assessment: International perspectives. Heidelberg: Springer-Verlag; 1994.

123. KIDSCREEN Group Europe. The KIDSCREEN Questionnaires: quality of life questionnaires for children and adolescents. Lengerich: Papst Science Publisher; 2006.

124. Ravens-Sieberer U, Gosch A, Rajmil L, Erhart M, Bruil J, Power M, et al. The KIDSCREEN-52 quality of life measure for children and adolescents: psychometric results from a cross-cultural survey in 13 European countries. Value Health. 2008 Aug;11(4):645–58.

125. Roizen M, Figueroa C, Salvia L. Calidad de vida relacionada con la salud en niños con enfermedades crónicas: comparación de la visión de los niños, sus padres y sus médicos. 105(4), 305-313. Arch Argent Pediatr. 2007;105(4):305–13.

126. The DISABKIDS Group Europe. The DISABKIDS Questionnaires. Lengerich, Germany: Pabst Science; 2006.

127. De Boer AGEM, van Lanschot JJB, Stalmeier PFM, van Sandick JW, Hulscher JBF, de Haes JCJM, et al. Is a single-item visual analogue scale as valid, reliable and responsive as multi-item scales in measuring quality of life? Qual Life Res. 2004 Mar;13(2):311–20.

128. Pico M, Spirito MF, Roizen M. Calidad de vida en niños y adolescentes con enfermedad celíaca: Versión argentina del cuestionario específico CDDUX. Acta Gastroenterol Latinoam. 2012 Mar;42(1):12–9.

129. Eiser C, Morse R. Can parents rate their child's health-related quality of life? Results of a systematic review. Qual Life Res. 2001;10(4):347–57.

130. Sung L, Young NL, Greenberg ML, McLimont M, Samanta T, Wong J, et al. Health-related quality of life (HRQL) scores reported from parents and their children with chronic illness differed depending on utility elicitation method. J Clin Epidemiol. 2004 Nov;57(11):1161–6.

131. Sawyer MG, Reynolds KE, Couper JJ, French DJ, Kennedy D, Martin J, et al. A two-year prospective study of the health-related quality of life of children with chronic illness--the parents' perspective. Qual Life Res. 2005 Mar;14(2):395–405.

132. Wallander JL, Schmitt M, Koot HM. Quality of life measurement in children and adolescents: issues, instruments, and applications. J Clin Psychol. 2001 Apr;57(4):571–85.

133. Pane S, Solans M, Gaite L, Serra-Sutton V, Estrada M, Rajmil L. Instrumentos de calidad de vida relacionada con la salud en la edad pediátrica. Revisión sistemática de la literatura: actualización. Barcelona: Agència d'Avaluació de Tecnologia i Recerca Mèdiques; 2006.

134. Aymerich M, Berra S, Guillamón I, Herdman M, Alonso J, Ravens-Sieberer U, et al. Desarrollo de la versión en español del KIDSCREEN, un cuestionario de calidad de vida para la población infantil y adolescente. Gac Sanit. 2005 Apr;19(2):93–102.

135. Tebe C, Berra S, Herdman M, Aymerich M, Alonso J, Rajmil L. Fiabilidad y validez de la versión española del KIDSCREEN-52 para población infantil y adolescente . Med Clin (Barc). 2008 May 10;130(17):650–4.

136. Berra S, Bustingorry V, Henze C, Díaz M del P, Rajmil L, Butinof M. Adaptación transcultural del cuestionario KIDSCREEN para medir calidad de vida relacionada con la salud en población argentina de 8 a 18 años. Arch Argent Pediatr. 2009 Aug;107(4):307–14.

137. Sepúlveda P R, Molina G T, Molina C R, Martínez N V, González A E, L MG, et al. Adaptación transcultural y validación de un instrumento de calidad de vida relacionada con la salud en adolescentes chilenos. Rev Med Chil. 2013 Oct;141(10):1283–92.

138. Hidalgo-Rasmussen CA, Rajmil L, Espinoza RM. Adaptación transcultural del cuestionario KIDSCREEN para medir calidad de vida relacionada con la salud en población mexicana de 8 a 18 años. Cien Saude Colet. 2014 Jul;19(7):2215–24.

139. Vélez CM, Lugo LH, García HI. Validez y confiabilidad del "Cuestionario de calidad de vida KIDSCREEN-27" versión padres, en Medellín, Colombia. Rev colomb psiquiatr. 2012;41(3):588–605.

140. Parizi AS, Garmaroudi G, Fazel M, Omidvari S, Azin SA, Montazeri A, et al. Psychometric properties of KIDSCREEN health-related quality of life questionnaire in Iranian adolescents. Qual Life Res. 2014 Sep;23(7):2133–8.

141. Hong SD, Yang JW, Jang WS, Byun H, Lee MS, Kim HS, et al. The KIDSCREEN-52 quality of life measure for children and adolescents (KIDSCREEN-52-HRQOL): reliability and validity of the Korean version. J Korean Med Sci. 2007 Jun;22(3):446–52.

142. Nezu S, Iwasaka H, Saeki K, Ishizuka R, Goma H, Okamoto N, et al. Reliability and validity of the Japanese version of the KIDSCREEN-52 health-related quality of life questionnaire for children/adolescents and parents/proxies. Environ Health Prev Med. 2015 Jan;20(1):44–52.

143. Grupo de investigación en Servicios Sanitarios del IMIM-Hospital del Mar. BiblioPRO [Internet]. 2008 [cited 2015 Jun 5]. Available from: http://www.bibliopro.org/

144. Nachman F, del Campo MP, González A, Corzo L, Vázquez H, Sfoggia C, et al. Long-term deterioration of quality of life in adult patients with celiac disease is associated with treatment noncompliance. Dig Liver Dis. 2010 Oct;42(10):685–91.

145. O'Leary C, Wieneke P, Buckley S, O'Regan P, Cronin CC, Quigley EMM, et al. Celiac disease and irritable bowel-type symptoms. Am J Gastroenterol. 2002 Jun;97(6):1463–7.

146. Tontini GE, Rondonotti E, Saladino V, Saibeni S, de Franchis R, Vecchi M. Impact of gluten withdrawal on health-related quality of life in celiac subjects: an observational case-control study. Digestion. 2010;82(4):221–8.

147. Apolone G, Mosconi P. The Italian SF-36 Health Survey: translation, validation and norming. J Clin Epidemiol. 1998 Nov;51(11):1025–36.

148. Usai P, Minerba L, Marini B, Cossu R, Spada S, Carpiniello B, et al. Case control study on health-related quality of life in adult coeliac disease. Dig Liver Dis. 2002 Aug;34(8):547–52.

149. Cranney A, Zarkadas M, Graham ID, Switzer C. The Canadian celiac health survey--the Ottawa chapter pilot. BMC Gastroenterol. 2003 May 11;3:8.

150. Ware J, Kosinski M, Keller SD. A 12-Item Short-Form Health Survey: construction of scales and preliminary tests of reliability and validity. Med Care. 1996 Mar;34(3):220–33.

151. Riddle DL, Lee KT, Stratford PW. Use of SF-36 and SF-12 health status measures: a quantitative comparison for groups versus individual patients. Med Care. 2001 Aug;39(8):867–78.

152. Zarkadas M, Cranney A, Case S, Molloy M, Switzer C, Graham ID, et al. The impact of a gluten-free diet on adults with coeliac disease: results of a national survey. J Hum Nutr Diet. 2006 Feb;19(1):41–9.

153. Cranney A, Zarkadas M, Graham ID, Butzner JD, Rashid M, Warren R, et al. The Canadian Celiac Health Survey. Dig Dis Sci. 2007 Apr;52(4):1087–95.

154. Hopman WM, Towheed T, Anastassiades T, Tenenhouse A, Poliquin S, Berger C, et al. Canadian normative data for the SF-36 health survey. Canadian Multicentre Osteoporosis Study Research Group. CMAJ. 2000 Aug 8;163(3):265–71.

155. Casellas F, López Vivancos J, Malagelada JR. Perceived health status in celiac disease. Rev Esp Enferm Dig. 2005 Nov;97(11):794–804.

156. Badia X, Roset M, Montserrat S, Herdman M, Segura A. La version española del EuroQol: descripción y aplicaciones. Med Clin (Barc). 1999;112 Suppl 1:79–85.

157. Quintana JM, Cabriada J, López de Tejada I, Varona M, Oribe V, Barrios B, et al. Translation and validation of the gastrointestinal Quality of Life Index (GIQLI). Rev Esp Enferm Dig. 2001 Nov;93(11):693–706.

158. Casellas F, Rodrigo L, Vivancos JL, Riestra S, Pantiga C, Baudet JS, et al. Factors that impact health-related quality of life in adults with celiac disease: a multicenter study. World J Gastroenterol. 2008 Jan 7;14(1):46–52.

159. Häuser W, Gold J, Stallmach A, Caspary WF, Stein J. Development and validation of the Celiac Disease Questionnaire (CDQ), a disease-specific health-related quality of life measure for adult patients with celiac disease. J Clin Gastroenterol. 2007 Feb;41(2):157–66.

160. Marchese A, Klersy C, Biagi F, Balduzzi D, Bianchi PI, Trotta L, et al. Quality of life in coeliac patients: Italian validation of a coeliac questionnaire. Eur J Intern Med. 2013 Jan;24(1):87–91.

161. Dorn SD, Hernandez L, Minaya MT, Morris CB, Hu Y, Leserman J, et al. The development and validation of a new coeliac disease quality of life survey (CD-QOL). Aliment Pharmacol Ther. 2010 Mar;31(6):666–75.

162. Casellas F, Rodrigo L, Molina-Infante J, Vivas S, Lucendo AJ, Rosinach M, et al. Transcultural adaptation and validation of the Celiac Disease Quality of Life (CD-QOL) Survey, a specific questionnaire to measure quality of life in patients with celiac disease. Rev Esp Enferm Dig. 2013 Dec;105(10):585–93.

163. Zingone F, Iavarone A, Tortora R, Imperatore N, Pellegrini L, Russo T, et al. The Italian translation of the celiac disease-specific quality of life scale in celiac patients on gluten free diet. Dig Liver Dis. 2013 Feb;45(2):115–8.

164. Kolsteren MM, Koopman HM, Schalekamp G, Mearin ML. Health-related quality of life in children with celiac disease. J Pediatr. 2001 Apr;138(4):593–5.

165. Lohiniemi S, Mustalahti K, Collin P, Maki M. Measuring quality of life in coelica disease patients. In: Lohiniemi S, Collin P, Maki M, editor. Changing features of coeliac disease. Tampere: The Finnish Coeliac Society; 1998. p. 73–7.

166. Altobelli E, Paduano R, Gentile T, Caloisi C, Marziliano C, Necozione S, et al. Health-related quality of life in children and adolescents with celiac disease: survey of a population from central Italy. Health Qual Life Outcomes. 2013;11:204.

167. Sim J. Collecting and analysing qualitative data: issues raised by the focus group. J Adv Nurs. 1998 Aug;28(2):345–52.

168. Koopman HM, Theunissen NCM, Vogels RP, Kamphuis RP, Verrips GH. The DUX-25, a short form questionnaire for measuring health related quality of life of children with chronic illness. Abstracts: 5th Annual Conference of the International Society for Quality of Life Research, 15-17 November 1998, Baltimore, Maryland, USA. New York: Springer; 1998. p. 619.

169. Theunissen NC, Vogels TG, Koopman HM, Verrips GH, Zwinderman KA, Verloove-Vanhorick SP, et al. The proxy problem: child report versus parent report in health-related quality of life research. Qual Life Res. 1998 Jul;7(5):387–97.

170. Picó M, Spirito MF. Adaptación transcultural del CDDUX: version español-argentina de un cuestionario de calidad de vida relacionado con la salud específico para niños con enfermedad celiaca. Med Infant. 2009;16(4):387–93.

171. Pico M, Spirito MF. Implementation of a health-related quality of life questionnaire for children and adolescents with celiac disease. Arch Argent Pediatr. 2014 Feb;112(1):19–25.

172. Nordyke K, Rosén A, Emmelin M, Ivarsson A. Internalizing the threat of risk--a qualitative study about adolescents' experience living with screening-detected celiac disease 5 years after diagnosis. Health Qual Life Outcomes. 2014;12:91.

173. Bullinger M, Alonso J, Apolone G, Leplège A, Sullivan M, Wood-Dauphinee S, et al. Translating health status questionnaires and evaluating their quality: the IQOLA Project approach. International Quality of Life Assessment. J Clin Epidemiol. 1998 Nov;51(11):913–23.

174. Beaton DE, Bombardier C, Guillemin F, Ferraz MB. Guidelines for the process of cross-cultural adaptation of self-report measures. Spine. 2000 Dec 15;25(24):3186–91.

175. López de la Vieja M. Ética de la investigación. Las buenas prácticas. Arbor. 2008;184(730):233–45.

176. Berra S, Tebé C, Esandi ME, Carignano C. Reliability and validity of the KIDSCREEN-52 questionnaire to measure health related quality of life in the 8 to 18 year-old Argentinean population. Arch Argent Pediatr. 2013 Feb;111(1):29–35.

177. Guillemin F, Bombardier C, Beaton D. Cross-cultural adaptation of health-related quality of life measures: literature review and proposed guidelines. J Clin Epidemiol. 1993 Dec;46(12):1417–32.

178. Molina G T, Montaño E R, González A E, Sepúlveda P R, Hidalgo-Rasmussen C, Martínez N V, et al. Propiedades psicométricas del cuestionario de calidad de vida relacionada con la salud KIDSCREEN-27 en adolescentes chilenos. Rev Med Chil. 2014 Nov;142(11):1415–21.

179. Chen G, Stevens K, Rowen D, Ratcliffe J. From KIDSCREEN-10 to CHU9D: creating a unique mapping algorithm for application in economic evaluation. Health Qual Life Outcomes. 2014;12:134.

180. Ravens-Sieberer U, Auquier P, Erhart M, Gosch A, Rajmil L, Bruil J, et al. The KIDSCREEN-27 quality of life measure for children and adolescents: psychometric results from a cross-cultural survey in 13 European countries. Qual Life Res. 2007 Oct;16(8):1347–56.

181. Gijon-Nogueron G, Ndosi M, Luque-Suarez A, Alcacer-Pitarch B, Munuera PV, Garrow A, et al. Cross-cultural adaptation and validation of the Manchester Foot Pain and Disability Index into Spanish. Qual Life Res. 2014 Mar;23(2):571–9.

182. Rajmil L, Serra-Sutton V, Fernandez-Lopez JA, Berra S, Aymerich M, Cieza A, et al. Versión española del cuestionario alemán de calidad de vida relacionada con la salud en población infantil y de adolescentes:el kindl. An Pediatr (Barc). 2004 Jun;60(6):514–21.

183. Estrada M-D, Rajmil L, Herdman M, Serra-Sutton V, Tebé C, Alonso J, et al. Reliability and validity of the Spanish version of the Child Health and Illness Profile Child-Edition/Child Report Form (CHIP-CE/CRF). Qual Life Res. 2012 Jun;21(5):909–14.

184. González-Gil T, Mendoza-Soto A, Alonso-Lloret F, Castro-Murga R, Pose-Becerra C, Martín-Arribas MC. The Spanish version of the health-related quality of life questionnaire for children and adolescents with heart disease (PedsQL(TM)). Rev Esp Cardiol (Engl Ed). 2012 Mar;65(3):249–57.

185. Bongiovanni TRS, Clark AL, Garnett EA, Wojcicki JM, Heyman MB. Impact of gluten-free camp on quality of life of children and adolescents with celiac disease. Pediatrics. 2010 Mar;125(3):e525–9.

186. Kratzer W, Kibele M, Akinli A, Porzner M, Boehm BO, Koenig W, et al. Prevalence of celiac disease in Germany: a prospective follow-up study. World J Gastroenterol. 2013 May 7;19(17):2612–20.

187. Roka V, Potamianos SP, Kapsoritakis AN, Yiannaki EE, Koukoulis GN, Stefanidis I, et al. Prevalence of coeliac disease in the adult population of central Greece. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2007 Nov;19(11):982–7.

188. Roos S, Kärner A, Hallert C. Gastrointestinal symptoms and well-being of adults living on a gluten-free diet: a case for nursing in celiac disease. Gastroenterol Nurs. 2009 Jun;32(3):196–201.

189. Instituto Nacional de Estadística [Internet]. [cited 2015 May 5]. Available from: http://www.ine.es/

190. Ljungman G, Myrdal U. Compliance in teenagers with coeliac disease--a Swedish follow-up study. Acta Paediatr. 1993 Mar;82(3):235–8.

191. Addington-Hall J, Kalra L. Who should measure quality of life? BMJ. 2001 Jun 9;322(7299):1417–20.

192. Knez R, Francisković T, Samarin RM, Niksić M. Parental quality of life in the framework of paediatric chronic gastrointestinal disease. Coll Antropol. 2011 Sep;35 Suppl 2:275–80.

193. Olsson C, Lyon P, Hörnell A, Ivarsson A, Sydner YM. Food that makes you different: the stigma experienced by adolescents with celiac disease. Qual Health Res. 2009 Jul;19(7):976–84.

194. Hallert C, Sandlund O, Broqvist M. Perceptions of health-related quality of life of men and women living with coeliac disease. Scand J Caring Sci. 2003 Sep;17(3):301–7.

195. Casellas F, Rodrigo L, Lucendo AJ, Fernández-Bañares F, Molina-Infante J, Vivas S, et al. Benefit on health-related quality of life of adherence to gluten-free diet in adult patients with celiac disease. Rev Esp Enferm Dig. 2015 Apr;107(4):196–201.

196. Häuser W, Musial F, Caspary WF, Stein J, Stallmach A. Predictors of irritable bowel-type symptoms and healthcare-seeking behavior among adults with celiac disease. Psychosom Med. 2007 May;69(4):370–6.

197. Hopman EGD, Koopman HM, Wit JM, Mearin ML. Dietary compliance and health-related quality of life in patients with coeliac disease. Eur J Gastroenterol Hepatol. 2009 Sep;21(9):1056–61.

198. Black JL, Orfila C. Impact of coeliac disease on dietary habits and quality of life. J Hum Nutr Diet. 2011 Dec;24(6):582–7.