UNIVERSIDAD DE DEUSTO

Facultad de Psicología y Educación

Programa de Doctorado en Psicología Clínica y de la Salud

Afrontamiento del estrés en padres y madres con hijos/as con enfermedades neuromusculares

Esther Lázaro Pérez

Bilbao, 2012

UNIVERSIDAD DE DEUSTO

Facultad de Psicología y Educación

Programa de Doctorado en Psicología Clínica y de la Salud

Afrontamiento del estrés en padres y madres con hijos/as con enfermedades neuromusculares

Tesis Doctoral presentada por Dña. Esther Lázaro Pérez

Director: Imanol Amayra Caro

El Director La Doctoranda

INDICE DE CONTENIDOS

Introducción 17

Parte 1. Marco teórico

Capitulo 1 Enfermedades neuromusculares

1.1. Definición 25

1.2. Tipología 26

1.2.1. Distrofia muscular de Duchenne 28

1.2.2. Distrofia muscular Becker 29

1.2.3. Leucodistrofia de Pelizaeus-Merzbacher 30

1.2.4. Miopatía mitocondrial 30

1.2.5. Miopatía congénita 31

1.2.6. Distrofia muscular congénita 31

1.2.7. Miastenia congénita 32

1.2.8. Charcot-Marie-Tooth 33

1.2.9. Atrofia muscular espinal 34

Capítulo 2 Afrontamiento del estrés: aspectos teóricos

2.1. Aspectos psicológicos de las enfermedades neuromusculares 35

2.2. El estrés: tipología 40

2.2.1. Estrés según el tipo de desencadenante 41

2.2.2. Estrés según los acontecimientos psicosociales 42

2.2.3. Estresores según la significación psicológica 43

2.2.4. Estresores según las propiedades formales de la situación 44

2.2.5. Estresores según la dimensión temporal 46
2.3. El estrés: modelos explicativos 48
2.3.1. Estrés como estímulo 49
2.3.2. Estrés como alteración fisiológica 50
2.3.3. Estrés como respuesta de adaptación 51
2.3.4. Estrés como respuesta neuro-endocrina..... 54
2.3.5. Teoría Transaccional de Lazarus y Folkman 60
2.3.6. Afrontamiento desde la Psicología Positiva 65
2.3.7. Modelo de resiliencia familiar ante el estrés 73
2.3.8. Modelo de las etapas del afrontamiento del duelo 75
2.3.9. Modelo de la perspectiva de cambio 76
2.3.10. Teoría de la Tristeza Crónica..... 77
2.4. Clasificación de las estrategias de afrontamiento 81
2.5. Evaluación del afrontamiento 83
2.5.1. Evaluación del afrontamiento en población general 84
2.5.2. Evaluación del afrontamiento en población clínica 86
2.6. Estrategias de afrontamiento basadas en la emoción 90
2.6.1. Evaluación positiva 90
2.6.2. Desarrollo personal 93
2.6.3. Autocontrol 94
2.6.4. Conformismo-resignación 96
2.6.5. Aceptación 97
2.6.6. Apoyo social 100
2.6.7. Búsqueda apoyo social emocional 107
2.6.8. Negación 108

2.6.9. Evitación 111
2.6.10. Evitación emocional 115
2.6.11. Evitación comportamental 115
2.6.12. Evitación cognitiva 115
2.6.13. Autoculpación 119
2.6.14. Culpación de otros 122
2.6.15. Religiosidad 123
2.6.16. Aceptación de la responsabilidad 126
2.6.17. Espera 126
2.6.18. Refrenar el afrontamiento 128
2.6.19. Espíritu de lucha 128
2.6.20. Preocupación ansiosa 129
2.6.21. Futuro incierto 130
2.6.22. Anticipación 132
2.6.23. Secretismo 132
2.6.24. Comparación social 134
2.6.25. Expresión emocional 137
2.7. Estrategias de afrontamiento centradas en el problema 139
2.7.1. Búsqueda y planificación de soluciones 139
2.7.2. Búsqueda apoyo social basado en el problema o instrumental 140
2.7.3. Búsqueda de apoyo profesional 141
2.7.4. Confrontación 141

Capítulo 3 Afrontamiento del estrés en familiares: revisión de la literatura

3.1. Introducción 143

3.2. Variables sociodemográficas 148

3.3. Afrontamiento del estrés en familiares con niños con enfermedades neuromusculares: revisión de la literatura 153

3.3.1. Estudios cualitativos 153

3.3.2. Estudios cuantitativos 175

Parte 2. Investigación empírica

Capítulo 4 Metodología

4.1. Introducción 193

4.2. Objetivos 193

4.2.1. Objetivo general 193

4.2.2. Objetivos específicos 194

4.3. Preguntas de investigación 194

4.4. Hipótesis 196

4.5. Justificación de la metodología cualitativa 197

4.6. Aproximación metodológica cualitativa: fenomenología y análisis temático deductivo 199

4.7. Muestra 203

4.8. Variables 207

4.8.1. Variables sociodemográficas 207

4.8.2. Variables relacionadas con el estrés y las reacciones emocionales 208

4.9. Instrumentos 221

4.9.1. Entrevista semiestructurada 221

4.10. Procedimiento 223

4.11. Análisis de los datos cualitativos 224

4.12. Análisis cuantitativo de los datos 226

Capitulo 5 Resultados

5.1. Resultados I: Parte descriptiva 228

5.2. Resultados II: Parte inferencial

5.2.1. Análisis de los supuestos de normalidad de las variables estudiadas 230

5.2.2. Homogeneidad de las variables sociodemográficas de la muestra 231

5.2.3. Comparación de las variables sociodemográficas teniendo en cuenta el género de los participantes 232

5.2.4. Comparación de las variables sociodemográficas teniendo en cuenta la esperanza de vida de los hijos de los participantes 232

5.3. Resultados III: Comparación entre grupos teniendo en cuenta el género y la esperanza de vida de forma separada 233

5.3.1. Pregunta de investigación 1: ¿Cuál es la vivencia del familiar en relación al presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados? 233

5.3.2. Pregunta de investigación 2: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al momento del diagnóstico según el género de los progenitores? 244

5.3.3. Pregunta de investigación 3: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación a la pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados? 248

5.3.4. Pregunta de investigación 4: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados? 252

5.4. Resultados IV: Comparación entre grupos teniendo en cuenta el género y la esperanza de vida (muerte prematura-muerte no prematura), de forma combinada ... 256

5.4.1. Pregunta de investigación 5: ¿Es diferente el uso de estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados de manera combinada? 256

5.5. Resultados V: relación entre las variables de afrontamiento 257

5.5.1. Pregunta de investigación 6: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores? 258

5.5.2. Pregunta de investigación 7: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta la esperanza de vida de los afectados? 264

5.5.3. Pregunta de investigación 8: ¿Afectan a las estrategias de afrontamiento la edad de los progenitores y la duración de la enfermedad? 270

Parte 3. Discusión y conclusiones

Capitulo 6 Discusión y conclusiones

6. Discusión..... 279

6.1. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos: frecuencias y correlaciones..... 281

6.1.1. Diferencias según el género de los progenitores..... 281

6.1.2. Diferencias según la esperanza de vida de afectados..... 284

6.2. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el momento del diagnóstico según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos..... 289

6.3. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con la relación de pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos..... 292

6.4. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos..... 295

6.5. Relación entre las estrategias de afrontamiento y la duración de la enfermedad y la edad de los progenitores..... 297

6.6. Conclusiones..... 300

6.7. Limitaciones del estudio..... 303

6.8. Implicaciones..... 306

Referencias bibliográficas..... 309

ANEXOS

Anexo 1: Modelo de consentimiento informado 366

ÍNDICE DE TABLAS

Tabla 1. Revisión de los principales estudios cuantitativos y cualitativos sobre afrontamiento en familias con hijos con enfermedades neuromusculares 185

Tabla 2. Características sociodemográficos de los padres y madres 205

Tabla 3. Frecuencias y porcentajes de años de escolarización de la muestra 206

Tabla 4. Género de los progenitores 228

Tabla 5. Presencia de muerte prematura asociada a la enfermedad y género progenitores ... 228

Tabla 6. Edad de los participantes en el estudio 229

Tabla 7. Edad de los hijos 229

Tabla 8. Tiempo transcurrido desde la fecha del diagnóstico 229

Tabla 9. Prueba de Kolmogorov-Smirnov 230

Tabla 10. Diferencia de medias según el género (Prueba U de Mann-Whitney) 237

Tabla 11. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura) 241

Tabla 12. Diferencia de medias según la esperanza de vida de la enfermedad (Prueba U de Mann-Whitney) 242

Tabla 13. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al momento del diagnóstico según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura) 247

Tabla 14. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación a la pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura) 251

Tabla 15. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura) 255

Tabla 16. Cálculo de la Prueba de Kruskal Wallis para establecer diferencias significativas entre grupos combinando las variables género de los padres y esperanza de vida de los hijos 257

Tabla 17. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de hombres 260

Tabla 18. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de mujeres..... 262

Tabla 19. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad conlleva esperanza de vida reducida..... 266

Tabla 20. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad no conlleva esperanza de vida reducida..... 268

Tabla 21. Diferencia de medias según la edad de los padres y madres (Prueba U de Mann-Whitney) 271

Tabla 22. Frecuencias según esperanza de vida y años desde diagnóstico 272

Tabla 23. Pruebas de chi-cuadrado..... 272

Tabla 24. Frecuencias según género y años desde diagnóstico..... 272

Tabla 25. Pruebas de chi-cuadrado..... 272

ÍNDICE DE FIGURAS

Figura 1. Modelo conceptual de factores relacionados con el afrontamiento del estrés 72

Figura 2. Tipos de enfermedad 229

Figura 3. Porcentaje de estrategias de afrontamiento en el colectivo de hombres 234

Figura 4. Porcentaje de estrategias de afrontamiento en el colectivo de mujeres 236

Figura 5. Porcentaje de estrategias del grupo con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura 238

Figura 6. Porcentaje de estrategias del grupo con hijos con enfermedad no asociada a muerte prematura 240

Figura 7. Frecuencias búsqueda apoyo emocional según años desde el diagnóstico 273

Figura 8. Frecuencias búsqueda apoyo instrumental según años desde el diagnóstico 274

Figura 9. Frecuencias búsqueda soluciones según años desde el diagnóstico 274

Figura 10. Frecuencias búsqueda apoyo profesional según años desde el diagnóstico 274

Figura 11. Frecuencias confrontación según años desde el diagnóstico 275

Figura 12. Frecuencias ansiedad según años desde el diagnóstico 275

Figura 13. Frecuencias tristeza según años desde el diagnóstico 275

Figura 14. Frecuencias evitación cognitiva según años desde el diagnóstico 276

Figura 15. Frecuencias expresión emocional según años desde el diagnóstico 276

Figura 16. Frecuencias desarrollo personal según años desde el diagnóstico 276

Figura 17. Frecuencias evaluación positiva según años desde el diagnóstico 277

“Problems are not the problem, coping is the problem”

(Virginia Satir)

En memoria de mi padre y de todos mis antepasados

Acebanos y Castrillenses que han hecho posible, a lo largo de

los siglos, que yo pueda estar aquí.

Dedicado a Oihana y Oiertxu.

En ellos he encontrado la motivación para realizar esta tesis.

Mil gracias por las horas que me habéis tenido que aguantar.

AGRADECIMIENTOS

Me gustaría dedicar estas líneas para las personas que de alguna manera me han ayudado en la realización de esta tesis.

En primer lugar, quiero agradecer de manera muy especial a mi Director de tesis, el Dr. Imanol Amayra, por todo lo que he aprendido de él, no solo a nivel académico sino también a nivel personal, siendo para mí como un "padre académico". Espero seguir aprendiendo de ti durante mucho tiempo. Quiero también agradecer al Dr. Juan Francisco López Paz por todos sus consejos y ánimos recibidos y, de manera especial, a Mireia Oliva por su gran aportación en esta tesis.

Una especial mención merecen todas las personas que he tenido la suerte de conocer a lo largo de mi trayectoria investigadora: Eneritz, Acebo, Javi, Izaskun, Susana, Sara, Eva, David y por supuesto, a lo miembros de mi equipo de investigación, simplemente porque juntos somos un equipo increíble: Amaia, Oscar, Imanol P., Garazi, Sarah y todas las personas que han colaborado con nosotros. Especial recuerdo a Arkaitz y Arrate.

Agradezco a la Asociación de Afectados por Enfermedades Neuromusculares de Bizkaia, Alava y Asturias su colaboración, sobre todo a los padres y madres partipantes, así como a Antonio Alvarez y Emilio Alday.

Gracias a Javi y Mari Carmen, por vuestra alegría y energía. Gracias a mi familia, por enseñarme que nunca hay que rendirse.

Introducción

Introducción

Las enfermedades neuromusculares o miopatías son enfermedades de carácter genético y generalmente hereditarias en las que puede verse afectado el conjunto comprendido por la neurona motora de la médula espinal, su axón, la unión neuromuscular y las fibras musculares que inervan la neurona y que conforman los músculos. En todas ellas, la característica más importante es la pérdida progresiva de fuerza muscular, junto con la atrofia o hiperatrofia, fatiga, mialgia, rigidez muscular y la degeneración del conjunto de los músculos y de los nervios que los controlan (Walton, 1991; Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004). La prevalencia media de estas enfermedades se estima en 1 de cada 3.500 personas Emery (2001).

Instituciones como la Unión Europea, a través de estrategias como el EUROPLAN, Proyecto Europeo de Desarrollo de Planes Nacionales para las Enfermedades Raras (2012), inciden en la importancia de desarrollar políticas que mejoren la calidad de vida de estas personas y de su entorno, englobando acciones enfocadas al estudio de sus necesidades psicosociales, estado psicológico o relaciones sociales (EUROPLAN, 2008-2011). A nivel estatal, dentro de las Estrategias en Enfermedades Raras del Sistema Nacional de Salud aprobada por el Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud (2009), se plantean, entre otras, las siguientes recomendaciones: 1) Ofrecer atención psicológica, apoyo y asesoramiento durante el proceso de la enfermedad así como en el momento del diagnóstico y durante el consejo genético; 2) Fomentar y promover recursos que mejoren la calidad de vida de las personas afectadas y que faciliten el mantenimiento de las personas en su entorno; 3)

Potenciar y desarrollar herramientas para la capacitación en cuidados sanitarios, apoyo emocional y fomento de la autoayuda de las personas cuidadoras de pacientes con enfermedades raras y 4) Potenciar, desde el ámbito sociosanitario, la adopción de medidas para mejorar la calidad de vida de las personas afectadas por enfermedades raras y sus familiares.

Estas estrategias nacen de la evidencia de que el nacimiento de un niño/a con una enfermedad neuromuscular representa una crisis vital para los padres y madres que tienen que afrontar un reto que va a afectar de manera significativa sus vidas. El cuidado de un niño/a con una enfermedad neuromuscular puede tener un profundo efecto en la vida de sus padres (Ziolko, 1991). La naturaleza progresiva y a largo plazo del deterioro de las enfermedades neuromusculares conlleva un debilitamiento en los recursos y energías familiares a medida que la enfermedad avanza. El estrés crónico es uno de los problemas más importantes que tienen que afrontar (Al-Gamal y Long, 2010). En esta línea, Lazarus y Folkman (1984) entienden el afrontamiento como aquellos esfuerzos cognitivos y conductuales constantemente cambiantes que se desarrollan para manejar las demandas específicas externas y/ o internas que son evaluadas como excedentes o desbordantes de los recursos del individuo.

Diferentes autores han analizado el impacto negativo de la enfermedad crónica en la salud psicológica de los miembros de la familia, a veces incluso más intenso que en el propio paciente (Holmes y Deb, 2003). Otros autores enfatizan que la experiencia de tener un hijo/a con discapacidad puede fortalecer a las familias una vez que han desarrollado las estrategias de afrontamiento adecuadas para hacer frente a la situación

(Thompson, 2009). Sin embargo, es escaso el número de estudios que valoran el impacto, ya sea positivo o negativo, de la enfermedad neuromuscular en los miembros de la familia (Katz, 2002; Böström y Ahlström, G., 2006). Esto es especialmente evidente en relación al estudio diferencial entre géneros y entre progenitores con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura y aquellos con enfermedad no asociada a muerte prematura (Katz, 2002).

En este contexto, se hace fundamental considerar el concepto de afrontamiento del estrés en padres y madres con hijos afectados por enfermedades neuromusculares como medio para profundizar en la vivencia de los familiares y las formas que tienen de hacer frente a los diferentes estresores. El objetivo de esta investigación es estudiar las estrategias de afrontamiento de padres y madres con hijos/as con algún tipo de enfermedad neuromuscular. Además, se pretende valorar la existencia de diferencias en la utilización de estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta variables como el género y la edad de los progenitores, la presencia o no de muerte prematura asociada a la enfermedad neuromuscular, así como la duración de la enfermedad. Para ello, se emplea un enfoque cualitativo basado en el análisis temático deductivo y posteriormente un enfoque cuantitativo para analizar los resultados obtenidos en el primer análisis.

El siguiente trabajo se ha organizado en dos apartados, una primera parte teórica y una segunda parte empírica.

La primera parte recoge, en tres capítulos, los planteamientos teóricos relacionados con la temática de la investigación: enfermedades neuromusculares y afrontamiento del estrés.

A lo largo del Capítulo 1 se describen las características de las enfermedades neuromusculares. Se define por cada tipología los siguientes aspectos: etiología, epidemiología, presentación clínica, síntomas característicos, curso de la enfermedad, clasificaciones, diagnóstico y pronóstico de la enfermedad.

En el Capítulo 2 se detalla, por un lado, los diferentes tipologías y modelos explicativos del estrés y de su afrontamiento y por otro lado, se realiza una revisión en detalle de las principales estrategias de afrontamiento basadas en el problema y en la emoción, que posteriormente van a servir como base para el análisis cualitativo que se llevará a cabo en este estudio. Este capítulo proporciona un amplio marco conceptual, tanto para fundamentar el estudio cualitativo, como para interpretar los resultados obtenidos.

En el Capítulo 3 se hace referencia a los estudios cuantitativos y cualitativos existentes en la literatura científica relacionados con el afrontamiento del estrés en familiares con niños con una enfermedad crónica en general y con enfermedades neuromusculares, en particular.

La segunda parte contiene el trabajo empírico, es decir, el análisis cualitativo de las entrevistas semiestructuradas realizadas a 50 familiares de niños con enfermedades neuromusculares, así como el posterior estudio cuantitativo.

En el Capítulo 4 se describen las preguntas de investigación planteadas y se justifica y detalla el procedimiento cualitativo. Además, se hace alusión a las características de la muestra, las variables analizadas, los apartados de la entrevista aplicada y el procedimiento del análisis de los datos cualitativos. Por otra parte, se plantean las hipótesis en base a los análisis inferenciales de los datos recabados en las entrevistas y se describe los análisis cuantitativos realizados.

El Capítulo 5 detalla los resultados obtenidos a partir del análisis cualitativo de las entrevistas realizadas. Concretamente, recoge en primer lugar los análisis para comprobar la normalidad o no de las variables estudiadas y, además, especifica las características sociodemográficas de la muestra. En segundo lugar, describe las estrategias de afrontamiento analizadas atendiendo a la frecuencia de aparición en las entrevistas y a diferentes variables sociodemográficas como el género de los progenitores y la esperanza de vida asociada a la enfermedad. Para ello, se tiene en cuenta el eje temporal, ya que los datos se analizan atendiendo a la percepción de los entrevistados según el presente, el momento del diagnóstico y el futuro.

El Capítulo 6 integra la discusión y las conclusiones, así como las limitaciones e implicaciones del estudio. En la discusión se analiza el grado de consecución de los objetivos, y se establece la conexión entre los resultados obtenidos y los preguntas de

investigación e hipótesis planteadas. Las conclusiones recopilan los aspectos más relevantes del trabajo, así como las limitaciones del mismo. Por último, se exponen algunas líneas de investigación que podrían resultar interesantes de cara al futuro.

El apartado Referencia Bibliográficas contiene toda la información de las citas que aparecen en el texto.

Por último, en el Anexo 1 se transcribe el modelo de consentimiento informado que firmaron los participantes en este estudio antes de llevar a cabo las entrevistas.

Parte 1.

Marco teórico

CAPÍTULO 1.

1. Enfermedades neuromusculares

1.1. Definición

Las enfermedades neuromusculares o miopatías son enfermedades de carácter genético y generalmente hereditarias en las que puede verse afectado el conjunto comprendido por a) la neurona motora de la médula espinal o núcleo motor, b) su axón, c) unión o placa neuromuscular y d) fibras musculares que inervan la neurona y que conforman los músculos (Walton, 1991; Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004).

Aunque en estos trastornos la afectación es esencialmente del músculo o nervio, existen algunas condiciones que comprometen otros órganos y tejidos (corazón, sistema nervioso central, etc.), dentro de las cuales están enfermedades como la distrofia miotónica de Steinert, las enfermedades mitocondriales, las distrofias musculares congénitas con compromiso de sistema nervioso central y también, la clásica distrofia muscular de Duchenne.

En todas ellas, la característica más importante es la pérdida progresiva de fuerza muscular, junto con la atrofia o hiperatrofia, fatiga, mialgia, rigidez muscular y la degeneración del conjunto de los músculos y de los nervios que los controlan.

El diagnóstico suele estar basado en la detección de altos niveles de enzimas de suero, normalmente queratina Kinasa y en la aplicación de diferentes procedimientos como el electromiograma (EMG), biopsia muscular y métodos de localización del fallo genético.

Desde el punto de vista de la epidemiología, los datos obtenidos tras una revisión de 150 estudios llevado a cabo por Emery (2001), revelan que la prevalencia media de enfermedades neuromusculares como la distrofia muscular de Duchenne, Becker, facioescapulohumeral, distrofia de cinturas, distrofia miotónica y congénita, miopatía congénita, atrofia muscular espinal o neuropatías sensitivas y motoras se estima en alrededor de 286x10(-6) casos, es decir 1 de cada 3.500 personas.

Por último, los tipos de terapia indicados incluyen, entre otras, a la medicación, Cirugía, Fisioterapia, Terapia Ocupacional, Logopedia y Psicología.

1.2. Tipología

Existen más de cien enfermedades neuromusculares diferentes organizadas en diferentes sistemas de clasificación. Uno de estos sistemas se basa en la zona neuromuscular afectada de la cual se obtienen cuatro tipos (Walton, 1991):

a) Trastornos de las neuronas del asta anterior o neurona motora (p.e. atrofia muscular espinal, esclerosis lateral amiotrófica, enfermedad de Werding-

Hofftnann). Los síntomas comunes son atrofia muscular, paresia, fasciculaciones y ausencia de reflejos tendinosos.

b) Trastornos de los nervios periféricos o polineuropatías (p.e. Charcot- Marie-Tooth, neuropatías sensitivas y motoras, síndrome de Guillain- Barré). Se manifiestan con debilidad muscular, pérdida de sensibilidad, disfunción autonómica, dolor distal, parestesias y pérdida de reflejos tendinosos.

c) Trastornos de la transmisión neuromuscular (p.e. Miastenia gravis, Botulismo). Las primeras manifestaciones se presentan en forma de debilidad proximal y distal anormal, ptosis.

d) Trastornos musculares o Miopatías (p.e. distrofia muscular de Duchenne (D.M.D.), D.M. de Becker, D.M. facioescapulohumeral). En estos trastornos, todos los síntomas se deben a la debilidad muscular progresiva.

La presente tesis se centra en el estudio de los mecanismos de afrontamiento de los padres y madres de niños y niñas afectados por las siguientes enfermedades neuromusculares: distrofia muscular de Duchenne, distrofia muscular de Becker, miopatía congénita, miastenia, Charcot Marie Tooth, Pelizaeus Merzbacher, atrofia muscular espinal, miopatía mitocondrial y distrofia muscular congénita. A continuación, se describen con detalle las enfermedades enumeradas.

1.2.1. Distrofia muscular de Duchenne

La distrofia muscular de Duchenne afecta al conjunto de los músculos del cuerpo (músculos esqueléticos, músculo cardiaco y músculos lisos). Es una enfermedad genética de transmisión recesiva ligada al cromosoma X y está relacionada con la carencia de una proteína de las fibras musculares denominada distrofina, la cual está codificada por el gen DYS, localizado en el cromosoma X. Fue descrita en 1860 por el Dr. Duchenne y es la más frecuente de las miopatías infantiles, llegando a afectar a uno de cada 3.500 varones recién nacidos (Emery, 1991). Otros estudios epidemiológicos realizados en diferentes países estiman que la prevalencia de esta enfermedad es de 1 caso de 10.190 hombres en la población del sureste chino (Chung, Wong e Ip, 2008) o de 1,3-1.8 de cada 10.000 niños entre 5-24 años en E.E.U.U. (Romitti et al., 2009). En relación a la incidencia, Dooley, Gordon, Dodds y MacSween, (2010) llevaron a cabo un estudio en Canadá durante el periodo comprendido entre 1969 y 2008 en el que estimaron que la enfermedad de Duchenne se daba en 1 de cada 4.700 niños nacidos, permaneciendo estable durante los 30 años del estudio.

Generalmente, no se presentan signos de la enfermedad hasta los tres años, aunque previamente puede existir retraso en la capacidad para andar. Al cabo de los años, aparece una debilidad muscular progresiva de los miembros y del tronco. Pronto se hace imposible subir escaleras. Más tarde, hacia los 10 ó 12 años, la capacidad para andar y para utilizar los miembros superiores se ven progresivamente limitadas, haciéndose necesario el uso de silla de ruedas. De manera habitual, tras la pérdida de la marcha, se desarrolla una escoliosis que con frecuencia es grave. La afectación de los

músculos respiratorios comporta una especial predisposición a contraer infecciones broncopulmonares. Desde el punto de vista de la afectación cerebral, se estima que el 20% pueden tener daño cognitivo severo (Cyrulnik et al., 2008). La esperanza de vida se estima entre los 20 y 30 años (Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004; Feldman, Grisold, Rusell y Zifko, 2005).

1.2.2. Distrofia muscular Becker

Otro tipo de distrofia muscular es la denominada Becker. Es una enfermedad genética causada por la anomalía de un gen localizado en el cromosoma X, cuya transmisión es de tipo recesivo ligado al cromosoma X. Afecta a uno de cada 35.000 varones. Se manifiesta por una pérdida progresiva de la fuerza de los músculos de los miembros y del tronco, aunque con una progresión más lenta que en el caso de la distrofia muscular de Duchenne. Al principio sólo afecta a los músculos de las piernas dando como resultado un andar miopático o dandinante, sobre las puntas de los pies, mientras que las pantorrillas adquieren una apariencia muy musculosa. Son frecuentes los calambres, habitualmente durante la realización de una actividad física. En la mayor parte de los casos el corazón también está afectado. La evolución de esta enfermedad es muy variable. La afectación de las piernas, progresivamente dificulta la capacidad para subir escaleras y para andar, aunque en más del 50% de los casos la capacidad de la marcha se mantiene por encima de los 40 años (Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004; Kliegman, Behrman, Jenson y Stanton, 2007).

1.2.3. Leucodistrofia de Pelizaeus-Merzbacher

La leucodistrofia de Pelizaeus-Merzbacher, descrita a principios del siglo XX, implica un déficit en la formación de mielina en el cerebro y la médula espinal. El modo de transmisión está ligado al cromosoma X y al igual que la enfermedad anterior, afecta a hombres y es transmitida por vía materna. Según la Asociación Española contra la Leucodistrofia (2009), en España existen quince casos diagnosticados de esta enfermedad. Un estudio realizado en Estados Unidos (Bonkowsky et al., 2010) concluye que la incidencia de las leucodistrofias, entre las que se encuentra la enfermedad de Pelizaeus-Merzbacher, se estima en 1 de cada 7.663 nacimientos.

En relación a las manifestaciones clínicas, es en los primeros meses de vida cuando la enfermedad se manifiesta por una hipotonía, movimientos sacádicos oculares y movimientos anormales de los miembros. Progresivamente el niño sufre una degeneración progresiva del sistema nervioso central y un deterioro de la coordinación, habilidades motoras y capacidades intelectuales.

1.2.4. Miopatía mitocondrial

Las miopatías mitocondriales pueden afectar a cualquier sistema muscular del cuerpo, aunque suelen limitarse al músculo esquelético. Generalmente, son los músculos proximales los más afectados, pero también puede existir afectación extraocular y de los músculos distales. En la mayoría de los casos progresa lentamente y puede aparecer en cualquier edad (Feldman, Grisold, Rusell y Zifko, 2005). Diferentes

estudios estiman que la prevalencia de esta enfermedad se sitúa en 9.2 de cada 100.000 personas (Schaefer et al., 2008).

1.2.5. Miopatía congénita

Dentro del epígrafe de las miopatías congénitas, se incluyen la miopatía multi o minicore, miopatía nemalítica o la miopatía centronuclear. En la miopatía congénita multiminicore el niño presenta hipotonía y retraso en el desarrollo motor. También se puede manifestar paladar hendido, dislocación de cadera y artrogriposis. Los pacientes pueden presentar hipotonía en la infancia, aunque los músculos paraespinales pueden estar rígidos y el cuello relativamente inmóvil (Feldman, Grisold, Rusell y Zifko, 2005). Por su parte, la miopatía nemalítica en su forma infantil puede comportar hipotonía severa y parálisis bilateral facial, dificultades respiratorias, debilidad variable, afectación de los músculos bulbares y oftalmoplejia. Los pacientes son delgados debido a la reducción de masa muscular y la debilidad facial conlleva una pérdida de expresión facial. Su curso puede ser estático o progresivo.

1.2.6. Distrofia muscular congénita

Las distrofias musculares congénitas son un grupo heterogéneo de enfermedades con transmisión autosómica recesiva. Sus principales tipos son la forma clásica de distrofia muscular con o sin merosina, el síndrome de Ullrich y el síndrome de la columna rígida. Las dos primeras formas son las más comunes en los países occidentales. La forma clásica de distrofia muscular congénita con o sin merosina, se

manifiesta desde el nacimiento. El niño presenta flaccidez, los miembros permanecen flexionados debido a las retracciones musculares, lo que impide que el niño se mantenga en pie o pueda andar (Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004). Uno de los estudios en los que se ha estimado la epidemiología de la distrofia muscular congénita es el llevado a cabo en Italia (Mostacciuolo et al., 1996). La tasa de incidencia estimada durante el periodo 1979-1993 fue de $4.65x10^{-5}$, mientras que la prevalencia del año 1993 fue de $6.8x10^{-6}$.

1.2.7. Miastenia congénita

La miastenia congénita es una enfermedad de la unión neuromuscular. Se diferencia de la miastenia clásica por la ausencia de características autoinmunes. Los síndromes miasténicos congénitos son enfermedades raras con una prevalencia de 1 persona por cada 500.000 (Hantaï, Richard, Koenig y Eymard, 2004). Su modo de transmisión puede ser autosómico recesivo o dominante. Con frecuencia, se inicia desde el nacimiento, aunque a veces no se manifiesta hasta la edad adulta. Sus características principales son las siguientes: debilidad muscular localizada o generalizada agravada por el esfuerzo, ptosis o caída del párpado superior, parálisis de los músculos del ojo, trastornos de la deglución e insuficiencia respiratoria. Esta enfermedad puede evolucionar por brotes, ser progresiva, con escasa evolución o mejorar con el tiempo (Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004).

1.2.8. Charcot-Marie-Tooth

La enfermedad de Charcot-Marie-Tooth es una neuropatía hereditaria sensitivo-motora y supone uno de los trastornos neurológicos hereditarios más comunes, afectando aproximadamente a 1 de cada 2.500 personas en E.E.U.U. (National Institute of Neurological Disorderes and Stroke, 2002; Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004). Otro estudio epidemiológico realizado en Italia apunta a que la prevalencia de esta enfermedad es de 17,5 de cada 100.000 personas (Morocutti et al., 2002). En la misma línea se ha estimado que la prevalencia del Charcot-Marie-Tooth en Islandia es de 12 de cada 100.000 personas (Guomundsson, Ólafsson, Jakobsson y Lúovigsson, 2010).

Una de las características más destacadas de esta enfermedad es el hecho de que los pies se vuelven cabos, los dedos se contraen en forma de garra y se hace imposible el apoyo sobre la parte delantera del pie para andar. Los músculos que permiten elevar el pie son débiles, lo que obliga a la marcha en *steppage*, es decir a tener que levantar el pie a suficiente altura para que la punta no tropiece con el suelo. Otros síntomas frecuentes son la fatigabilidad, la inestabilidad del equilibrio y la dificultad para mantener la posición erguida o para subir escaleras. La afectación de las manos suele ser más tardía y aparece sólo tras varios años de evolución de la enfermedad. La evolución es muy variable, siendo progresiva o por brotes. La esperanza de vida no se ve afectada.

1.2.9. Atrofia muscular espinal

La atrofia muscular espinal es una enfermedad neuromuscular hereditaria de transmisión autosómica recesiva que forma parte de los trastornos de la neurona motora y que afectan al asta anterior de la médula espinal. Dichos trastornos entre los que se encuentran también la esclerosis lateral amiotrófica y la esclerosis lateral primaria tienen una incidencia de entre el 1.82 y el 1.66 de cada 100.000 personas al año y una prevalencia de 4.43 a 4.70 por 100.000 (Huisman et al., 2009). La atrofia muscular espinal, en concreto tiene una prevalencia estimada de un caso de cada 6.000 a 10.000 nacimientos (Asociación Francesa contra las Miopatías, 2004). Otros estudios en población inglesa clínica apuntan a una prevalencia de 1.87 de cada 100.000 pacientes (Norwood et al., 2009) y en población alemana de 1 de cada 100.000 (Thieme, Mitulla, Schulze & Spiegler, 1994).

Está causada por la degeneración de las neuronas motoras alpha de la médula espinal, provocado a su vez por anomalías en el gen que codifica la proteína SMN, localizado en el cromosoma 5. El comienzo y severidad de los síntomas depende del tipo de atrofia muscular espinal. La forma 1 o de Werdnig-Hoffmann es la forma más severa. En este tipo se da una debilidad muscular que conlleva la muerte por la pérdida de respiración. La forma 2 ocasiona debilidad que aparece entre los meses 18-24. Es menos severa que la forma 1, pero los niños pueden ser incapaces de andar o para mantenerse de pie y desarrollar escoliosis y fallo respiratorio. Se caracterizan por la debilidad y degeneración precoces de los músculos de la pelvis, de los hombros, del tronco y de los brazos y piernas. Su evolución es variable y difícil de pronosticar, aunque generalmente cuanto más precoz es su inicio, más grave es su diagnóstico.

CAPÍTULO 2

Capítulo 2 Afrontamiento del estrés: aspectos teóricos

2.1 Aspectos psicológicos de las enfermedades neuromusculares

Históricamente, la mayoría de los niños con discapacidad no convivían en su núcleo familiar, sino que ingresaban en un centro especializado. En la actualidad, sin embargo, estos niños conviven con su familia, con las implicaciones que de ello se deriva para sus padres o principales cuidadores de cara a la atención que requiere el afectado (Thompson, 2009).

La aparición de una enfermedad crónica en una familia supone una situación de crisis y un deterioro en la calidad de vida, tanto del afectado como de los demás miembros. El carácter estresante de la enfermedad puede ser consecuencia de las demandas de ajuste que plantea y depende de múltiples variables como la duración, forma de aparición, intensidad y gravedad, aparición de dolor, sentimientos de impotencia, pérdida de roles sociales, cambio en la dinámica familiar.

El proceso de estrés familiar se da cuando el proceso de transformación ante el estresor no es suficiente como para manejar un cambio en el sistema (Burr y Klein, 1994). Según Hill (1949) una crisis familiar se genera en un marco en el cual un evento (A), que interacciona con los recursos de la familia en crisis (B) y con la definición que hace de la situación (C), produce una crisis (X). Esta crisis supone un proceso de

adaptación que va a requerir de sus miembros un cambio en su funcionamiento interno (conductas, roles, normas, percepciones) y en su funcionamiento externo. Este modelo ha sido ampliado por McCubbin y Patterson (1982) al incluir una segunda fase de adaptación posterior a la crisis inicial y compuesta por: (A) las demandas familiares, (B) los recursos familiares, (C) las definiciones y significados de la familia y finalmente (X) la adaptación familiar.

A lo largo de la literatura científica podemos encontrar múltiples evidencias del hecho de que los padres y madres con hijos/as con discapacidad experimentan estrés de manera continuada. Esto afecta a un gran número de situaciones relacionadas con diferentes aspectos de la vida familiar, incluyendo las demandas por el cuidado del afectado, el ámbito emocional, las dificultades interpersonales, los problemas financieros y las consecuencias en el ámbito social (Gupta y Singhal, 2004).

Patterson y McCubbin (1983) describen diferentes fuentes de estrés que pueden experimentar las familias con un hijo con una enfermedad crónica:

1) Tensión en las relaciones familiares: sobreprotección, amenaza del desarrollo e independencia infantil, alianzas entre el cuidador principal y el niño/a, culpabilizar al niño, rechazo manifiesto o encubierto, preocupación sobre las responsabilidades del cuidado parental, comparación entre hermanos, incremento general de la tensión intrafamiliar y conflicto.

2) Modificaciones en las actividades y objetivos familiares, reducción de la flexibilidad en el disfrute del tiempo libre y restricción de las opciones de cara a organizar vacaciones familiares, menor oportunidades para los padres y madres para desarrollar sus carreras profesionales, presocupación e incertidumbre sobre si tener o no otro hijo en el caso de que la enfermedad esté ligada a transmisión genética.

3) Carga e incremento de tareas y de compromisos: necesidad de dietas especiales, limpieza extra de la casa y de las ayudas técnicas, provisión de cuidados y tratamientos diarios y compromisos extra con servicios médicos.

4) Incremento de la carga financiera derivada de las consultas a médicos especializados, hospitalizaciones, medicación, equipamientos necesarios, terapias, que afectan a la economía familiar.

5) Necesidad de adaptación del hogar en relación a las necesidades de movilidad del afectado.

6) Aislamiento social: reacción de familiares y amigos, sentimientos de vergüenza ante la existencia de anormalidades visibles, movilidad limitada, no disponibilidad de cuidados adecuados, miedo a accidentes, exposición a infecciones o enfermedades así como limitación de la vida social.

Otra serie de problemas frecuentes en el manejo de un niño con discapacidad que van a afectar directamente a la calidad de vida de la familia son los problemas de

sueño, las cargas físicas relacionadas con la movilización, ayuda a la hora de vestir, complicaciones en la dieta o la impredictibilidad de la enfermedad (Naidoo, 1984). Estos problemas pueden aumentar el riesgo de divorcios y de conflictos conyugales. Son también comunes los sentimientos de baja autoestima y falta de esperanza (Ziolko, 1991; Garrido, Hash-Converse, Levental y Leventhal, 2011).

El estrés experimentado por los familiares puede verse influenciado por variables específicas del afectado como la edad, el género, la severidad de la enfermedad, la clase social, los ingresos familiares o la percepción social sobre la enfermedad. Además se pueden generar niveles de estrés adicional provocados por conflictos maritales, cargas financieras, fatiga o falta de tiempo libre (Beresford, 1994).

Los estresores familiares pueden ser categorizados como predecibles/inesperados, ambiguo/claro, voluntario/ involuntario, crónico/agudo, acumulativo/aislado. El nacimiento de un niño con una enfermedad neuromuscular es un hecho principalmente no predecible, a excepción de los casos en lo que exista historial médico. También es un hecho involuntario, ambiguo y su duración en ocasiones está mediatizada por la inminencia de una muerte prematura o por la falta de curación. Muchas familias han tenido que sufrir muchos momentos de ambigüedad hasta llegar a un diagnóstico correcto y a la ayuda necesaria para su caso concreto. El hecho de tener un miembro de la familia con discapacidad supone hacer frente a un estresor crónico y acumulativo (Williams, 2012).

Las investigaciones sugieren que el distress parental no tiene porqué ser resultado directo de la severidad del estado del niño y /o estar asociado a dificultades en conducta adaptativa. Multitud de variables van a estar influyendo también, como los factores familiares tales como apoyo social, otros estresores de la vida, cambio de roles, conflictos maritales, divorcios o estrategias de afrontamiento (Buchanan, 1979, Cohen, 1999; Farmer, 2004; Wallander, 2003). Hay que tener presente que la relación entre el estrés parental y el ajuste psicológico del niño es bidireccional.

A menudo los padres y madres experimentan actitudes negativas en relación a la enfermedad de sus hijos/as, lo que les lleva a experimentar sentimientos de pesimismo, culpabilidad, hostilidad, negación, pena, desesperanza, depresión o rechazo (Gupta y Singhal, 2004). Estas actitudes negativas afectan de manera adversa a los padres y madres, provocando efectos psicológicos como la depresión, la insatisfacción marital, la inestabilidad emocional, el aislamiento social, la tristeza crónica o niveles pobres de salud psicológica y los trastornos de ansiedad generalizada (Chandorkar y Chakraborty, 2000).

Desde el punto de vista de la respuesta emocional que los padres y madres experimentan frente a una situación estresante, como lo es el hecho de que su hijo/ tenga una discapacidad, autores como Fredrickson (2009) o Trute, Benzies y Worthington (2012) hacen hincapié en que esta respuesta puede incluir tanto momentos de tristeza como de alegría. Enfatizan que las personas pueden experimentar tanto sentimientos positivos como negativos en respuesta a la misma situación de estrés. La vivencia de emociones positivas facilita que la persona se sobreponga y utilice recursos de

afrontamiento sociales, a la vez que ayuda a disminuir la influencia a largo plazo de los efectos de las emociones negativas. Estas emociones positivas incluyen un amplio rango de estados tales como la serenidad, el interés, la esperanza, la inspiración, el amor, el orgullo o la diversión (Fredrickson, 2009).

Para entender el proceso de afrontamiento del estrés de las familias con un hijo afectado por una enfermedad neuromuscular, a continuación se presentan los diferentes modelos de estrés más relevantes que se observan a lo largo de la literatura científica sobre este particular, describiéndose tanto los tipos de estresores como las diferentes teorías sobre el afrontamiento del estrés.

2.2 El estrés: tipología

En los párrafos siguientes se va a abordar el estrés teniendo en cuenta su tipología, atendiendo a los acontecimientos psicosociales que rodean al individuo, a la significación psicológica que posee, a las propiedades formales de la situación y a la dimensión temporal. Por otra parte, se describirán las principales teorías y modelos explicativos referidos al concepto del estrés y afrontamiento, realizando un repaso histórico abarcando las teorías que conciben al estrés como respuesta (Cannon, 1932; Selye, 1956; Everly, 1989), como estímulo (Holmes y Rahe, 1967) o como transacción (Lazarus y Folkman, 1984, 2000).

2.2.1. Estrés según el tipo de desencadenante

Entre las múltiples clasificaciones o taxonomías que la literatura nos ofrece respecto de las condiciones desencadenantes del estrés, muy probablemente una de las más generales sea la diferenciación planteada por Everly (1989) entre estresores psicosociales y biogénicos.

Los desencadenantes psicosociales hacen referencia a aquellos estímulos o situaciones que no causan directamente la respuesta de estrés, sino que se convierten en estresores a través de la interpretación o significado que les da el individuo.

Por otro lado, los estresores biogénicos actúan directamente sobre el organismo causando o desencadenando la respuesta de estrés. Este tipo de estresores evitan el mecanismo de valoración cognitiva y trabajan directamente sobre los núcleos elicitadores neurológicos y afectivos. Como consecuencia de sus propiedades bioquímicas, inician directamente la respuesta de estrés sin un proceso cognitivo-afectivo (Fernández-Abascal, 2003). Como ejemplos de esta categoría se pueden describir los causados por elementos de tipo exógeno, como la ingestión de determinadas sustancias químicas, o ciertos factores físicos (dolor, calor o frío extremo). También aquéllos de tipo endógeno, como determinados cambios hormonales acaecidos en el organismo.

2.2.2. Estrés según los acontecimientos psicosociales del individuo

Autores como Lazarus y Folkman (1984), Forman (1993) y Fernández-Abascal (1997, 2003) refieren tres tipos de acontecimientos psicosociales típicamente inductores de estrés:

1. Cambios mayores que afectan a un gran número de personas: considerados estresantes de forma universal y fuera de nuestro control (desastres naturales, guerras). Son hechos que pueden prolongarse en el tiempo o que, ocurriendo de una forma súbita (un terremoto, un atentado, etc.), ejercen un efecto físico y psicológico que puede dilatarse temporalmente. Se conocen también como estresores únicos y son los causantes de los patrones de estrés agudo y post-traumático.

2. Cambios mayores que afectan sólo a una persona o a un grupo poco numeroso de personas: denominados también estresores múltiples, hacen referencia a ciertos acontecimientos que pueden hallarse fuera del control de la persona (muerte de un ser querido, una amenaza a la propia vida, una enfermedad incapacitante o la pérdida del puesto de trabajo); o también a otros tipos de acontecimientos que están fuertemente influidos por la propia persona (divorcios, tener un hijo o someterse a un examen importante). Estos estresores múltiples son los responsables del estrés crónico.

3. Los estresores diarios o cotidianos: son aquellas pequeñas cosas que pueden perturbarnos en un momento particular (atasco de tráfico, perder un documento de trabajo o discutir con un compañero). Aunque estos acontecimientos o estímulos resultan experiencias menos dramáticas en intensidad que los cambios mayores, son mucho más frecuentes, y, quizá por ello, más importantes en el proceso de adaptación al medio y de conservación de la propia salud.

2.2.3. Estresores según la significación psicológica

Jones y Bright (2001) clasifican las condiciones estresantes en función de la significación psicológica o relevancia motivacional de la situación en el individuo:

1. Estresores proximales: hacen referencia a los cambios o acontecimientos que tienen una cercanía psicológica o relevancia personal. Provocan que diferentes personas, ante una misma situación, respondan mayoritariamente ante los estresores aunque no tengan los mismos efectos para todos.

2. Estresores distales: son cambios o acontecimientos que no forman parte significativa de las preocupaciones del individuo. En consecuencia, la probabilidad de que se vea afectada por ellos dependerá más de su historia personal que del estresor en sí mismo.

Según esta clasificación, los estresores que son proximales para una persona en particular desencadenarán una activación más intensa, mientras que los distales generan

una mayor variabilidad en función de las diferencias individuales, produciéndose una amplia diferenciación en sus formas de reaccionar ante ellos.

2.2.4. Estresores según las propiedades formales de la situación

Lazarus y Folkman (1986) proporcionan una clasificación del estrés en base a las propiedades formales de las situaciones. Entre las características que parecen contribuir a hacer estresante un acontecimiento o situación estos autores han tenido en cuenta los siguientes:

1. Novedad de la situación: la novedad absoluta es muy rara, razón por la cual los autores se refieren a la novedad como una característica relativa. Desde esta perspectiva, una situación nueva resultaría estresante cuando existe una asociación previa con daño o peligro, pudiéndose convertir entonces la novedad en fuente de amenaza. Además, una situación nueva es ambigua y requiere de una inferencia para su interpretación. Cuanto mayor sea la inferencia requerida, mayor será la probabilidad de error, y probablemente mayor será el grado de amenaza e incertidumbre.

2. Falta de predictibilidad: grado en el que se puede predecir lo que va a ocurrir. Aquellas situaciones en las que es posible predecir lo que ocurrirá, aunque tenga carácter aversivo, generan menores respuestas de estrés. Este hecho se debe probablemente a la posibilidad de poder preparar una respuesta adecuada, que permita hacer frente de manera efectiva a la situación.

3. Incertidumbre del acontecimiento: influencia que puede ejercer sobre la valoración de la probabilidad de ocurrencia de un determinado evento o situación de resultado. En términos de probabilidad, cuanto mayor sea el grado de incertidumbre o cuando su probabilidad de aparición se encuentra más cercana al cincuenta por ciento, más estresante será la situación. En cambio, en aquellos casos en los que exista una mayor certeza, ya sea respecto de la aparición o no aparición del evento, es decir, cuando su probabilidad de aparición se encuentra próxima al cien o al cero por ciento, el estrés disminuirá.

La incertidumbre de un acontecimiento puede resultar estresante ya que tiene un efecto inmovilizador sobre los procesos de afrontamiento anticipatorio (Lazarus y Folkman, 1986). El no saber con certeza si va a ocurrir un acontecimiento determinado puede dar lugar a un dilatado proceso de evaluación y reevaluación que genere pensamientos, sentimientos y conductas que, a su vez, crean sentimientos de desesperanza y, finalmente, confusión.

4. Inminencia o tiempo que media antes de la aparición u ocurrencia del acontecimiento: generalmente, cuanto más inminente es una situación, más intensa resulta su evaluación, especialmente si existen señales que indiquen daño, peligro o bien la posibilidad de dominio o ganancia. Sin estas señales, no es probable que el factor inminencia incida sobre la valoración. Por otra parte, cuanto más prolongado sea el tiempo de anticipación, mayor es la probabilidad de complejidad en la evaluación, dados los procesos mediadores que tienen lugar en estos casos. Con tiempo disponible, el individuo puede reflexionar, sufrir o

afligirse, evitar el problema, pensar sobre él, actuar o intentar lograr su autocontrol. Cada uno de estos procesos de afrontamiento afectará a las evaluaciones posteriores y a las emociones acompañantes.

5. La duración o período de tiempo que persiste un acontecimiento o situación estresante: los estresores prolongados o crónicos agotan al individuo psicológica y físicamente. Hay que considerar también el efecto de la habituación, que posibilita una disminución de las respuestas (conductuales o fisiológicas) que se dan como consecuencia de la repetición de los estímulos, pudiendo aparecer también como resultado del afrontamiento cognitivo. De esta manera, el individuo aprende a afrontar las demandas, o bien a evitar o distanciar el agente estresante.

2.2.5. Estresores según la dimensión temporal

Elliot y Eisdorfer (1982) clasifican los estresores en función de su dimensión temporal:

1. Estresores agudos limitados en el tiempo, como por ejemplo esperar una intervención quirúrgica.

2. Secuencias estresantes o series de acontecimientos que ocurren durante un período prolongado de tiempo como resultado de un acontecimiento inicial

desencadenante, como, por ejemplo, la pérdida de empleo, un divorcio o el fallecimiento de un familiar cercano.

3. Estresores crónicos intermitentes como pueden ser las visitas periódicas a familiares con los que se mantiene una relación conflictiva o las épocas de exámenes.

4. Estresores crónicos como una incapacitación permanente, discusiones constantes con la pareja o un ambiente laboral conflictivo.

5. Incertidumbre temporal o desconocimiento de cuándo se va a producir un acontecimiento dado. El estímulo resultará estresante cuando ciertas señales de amenaza indiquen que el acontecimiento va a ocurrir, es decir, ante la inminencia de su aparición. Por lo tanto, la cuestión clave es el grado de inminencia.

6. Ambigüedad: se produce cuando la información necesaria para la evaluación de la situación resulta poco clara o es insuficiente, lo que dificulta la respuesta eficaz ante ella. Cuanto mayor es la ambigüedad, mayor es la influencia de los factores personales en la determinación del significado de la configuración del entorno. La comprensión de la situación está más en función del individuo que de los estímulos objetivos. En muchos casos, la ambigüedad puede ser amenazante y el individuo puede intentar reducirla buscando más información o mediante procesos deductivos y juicios arbitrarios. Por otro lado, hay situaciones

en las que la ambigüedad parece resultar ventajosa, como cuando permite mantener la esperanza o prevenir una conclusión prematura.

2.3. El estrés: modelos explicativos

El término estrés se ha utilizado ampliamente a lo largo de la historia. Hace siete siglos ya se hacía referencia a este concepto para reflejar dureza, tensión, adversidad o aflicción (Lumsden, 1981). Hace casi un siglo que Freud (1920) otorgó a la ansiedad un papel central en la Psicología, afirmando que la ansiedad secundaria a conflictos sirve como señal de peligro para activar los mecanismos de defensa, entendidos como formas insatisfactorias de afrontamiento que producían modelos de sintomatología dependientes del tipo de defensa.

Desde el punto de vista de la salud, es un concepto clave, ya que la exposición prolongada al estrés tiene un efecto en mecanismos centrales como la conducta, el humor, el funcionamiento endocrino, el sistema inmune, así como el aumento de la hormona cortisol, la reducción de linfocitos y alteraciones del circuito fronto-límbico (Fink, 2011). En este sentido, se ha asociado con mayor riesgo de enfermedades graves tales como los trastornos cardiacos, hipertensión, cáncer y otras infecciones, así como con trastornos emocionales como la depresión y la hostilidad. Por otra parte, las emociones positivas, las relaciones humanas positivas y el incremento de sentimientos de autoeficacia pueden aminorar los efectos negativos del estrés en el funcionamiento inmune (Schneiderman, McCabe y Baum, 1992; Lovallo, 1997).

A continuación, se describen los principales abordajes y teorías relacionadas con el estrés desde diferentes perspectivas y atendiendo a los diversos mecanismos que se ponen en marcha en el individuo ante los estímulos estresores: cognitivos, fisiológicos, emocionales, conductuales y de afrontamiento.

2.3.1. Estrés como estímulo (Holmes y Rahe, 1967)

Holmes y Rahe (1967) lideran este enfoque sobre el estrés el cual considera los cambios o eventos vitales como estresores ante los cuales la persona responde. Sin embargo, al contrario que en el modelo basado en la respuesta, el estrés es la variable independiente de la formulación.

La proposición más destacada que se deriva de este modelo es el hecho de que demasiados eventos y cambios vitales estresantes en un periodo de tiempo relativamente corto incrementan la probabilidad de la aparición de enfermedades. Desde este modelo se considera al individuo como un receptor pasivo de estrés.

Las principales afirmaciones que se defienden desde este modelo son las siguientes: a) los cambios vitales son normales. Dichos cambios provocan las mismas demandas de reajuste para todas las personas; Las transiciones tienden a ser estresantes (Moos and Schaefer, 1986). Los cambios de una fase a otra o transiciones pueden incluir situaciones vitales como el inicio de la adolescencia, empezar el colegio, moverse de casa, comenzar a trabajar, casarse, perder a tu pareja o divorciarse. b) el cambio es estresante a pesar del deseo que tenga la persona sobre su ocurrencia; c)

existe un umbral común de reajuste y adaptación más allá de la enfermedad que se pueda generar.

Este modelo ha generado una serie de instrumentos tales como el Social Readjustment Rating Scale o el Schedule of Recent Experiences (Holmes y Rahe, 1967). Ambos cuestionarios evalúan el estrés definiéndolo como el ajuste o adaptación requeridos para hacer frente a cambios o eventos vitales importantes.

2.3.2. Estrés como alteración fisiológica (Cannon, 1932)

En las primeras investigaciones sobre el estrés, éste fue identificado como un proceso de alteración fisiológica. Cannon (1932), uno de los pioneros en estudiar las respuestas fisiológicas ante una situación de estrés, aportó dos conceptos especialmente relevantes en este campo: homeostasis y respuestas de lucha y huida.

El concepto de homeostasis hace referencia al equilibrio interno en las funciones fisiológicas del organismo. El funcionamiento óptimo del organismo implica el mantenimiento de unas constantes vitales necesarias para la supervivencia y el bienestar. La perturbación de ese equilibrio por algún agente nocivo y los procesos reparadores subsiguientes, constituirían la reacción biológica de estrés. Secundariamente, esta movilización fisiológica serviría para potenciar las respuestas de lucha o huida (la conocida expresión de “fight or flight”) frente al agente perturbador.

2.3.3. Estrés como respuesta de adaptación (Selye, 1956)

Selye (1956) definió el estrés como el conjunto coordinado de reacciones fisiológicas ante cualquier forma de estímulo nocivo. Para Seyle cualquier demanda (física, psicológica, positiva o negativa) provoca una respuesta biológica del organismo idéntica y estereotipada. Esta respuesta es mensurable y corresponde a ciertas secreciones hormonales responsables de las reacciones de estrés somáticas, funcionales y orgánicas. Para este autor, el estrés es la respuesta de adaptación a unas demandas muy dispares a las que podemos denominar estresores, que se traducen en un conjunto de cambios y reacciones biológicas y orgánicas de adaptación general.

Selye (1956) distinguió entre dos tipos de estrés: por un lado, denominó como *eustress* al estrés positivo asociado a sentimientos positivos y a estados saludables. Por otro lado, se refirió al *distress* de manera negativa y asociado a sentimientos negativos y a estados no saludables.

Para este autor, el estrés es una compleja constelación de reacciones como respuesta a las demandas que son percibidas como excedentes de los recursos disponibles, incluyendo componentes psicológicos, cognitivos, afectivos y conductuales (Selye, 1982). Estas respuestas estereotipadas implican una activación del eje hipotalámico-hipofísico-suprarrenal y del sistema nervioso autónomo. A este proceso lo llamó el "Síndrome General de Adaptación " que presenta tres etapas claramente diferenciadas:

a) Reacción de alarma, cuando el organismo percibe un agente que identifica como nocivo y genera una respuesta inicial de alerta el organismo, provocando una hiperactivación fisiológica, presentando diferentes síntomas y movilizando defensas para responder a la posible amenaza. Es una reacción intensa y no dura mucho.

b) Fase de resistencia: dado que la primera fase no puede mantenerse por mucho tiempo, en la siguiente etapa el organismo busca adaptarse al agente nocivo (también denominado estresor) con objeto de que desaparecen los síntomas iniciales. El organismo sigue manteniendo la hiperactividad en su intento de superar la situación. Si el esfuerzo mantenido permite alcanzar la solución, se pondrá fin al Síndrome General de Adaptación. Si no es así, se pasará a la tercera fase.

c) Fase de agotamiento: si el estresor continúa, el organismo ingresa en la etapa donde reaparecen los síntomas y se produce una ruptura de los procesos de recuperación. El organismo pierde la capacidad de activación y desciende por debajo de los niveles habituales debido a la falta de recursos. Si se intenta mantener esta situación, el resultado será el agotamiento con consecuencias incluso mortales para el mismo.

Este autor estudió cómo los animales eran capaces de resistir los efectos de ciertos retos, tales como el calor, frío, infecciones o sustancias tóxicas sobre la homeostasis. Observó que se daban las siguientes reacciones de forma sistemática: decremento del timo y de otros órganos del sistema inmune, úlceras en el tracto intestinal o aumento de tamaño de las glándulas adrenales. Afirmó que la respuesta de estrés es necesaria para la supervivencia y es adaptativa. En este sentido, la exposición

repetida a estresores moderados podía incrementar la habilidad del organismo para adaptarse a mayores y más prolongadas exposiciones, sin embargo, un estrés prolongado y severo puede resultar en daño tisular o en enfermedad.

Cuando en la situación ambiental se ha producido un cambio, es necesario adaptarse a él. El organismo manda una señal de alerta nada más detectar el cambio, lo que inmediatamente se traduce en una respuesta de activación. Salvo que el cambio sea excesivamente dramático y produzca colapso o agotamiento, el organismo pondrá en marcha una serie de rutinas dirigidas a solucionar la situación.

Así, ante una situación de estrés, el individuo intentará recabar mayor información y lo procesará más rápidamente. Una vez perfiladas las conductas adecuadas, se pasará a considerar si el organismo es capaz de llevarlas a cabo. Si todos estos pasos han sido efectuados con éxito, se emitirán estas conductas para resolver la situación. Una vez resuelta se disminuirá la sobreactivación. Si ha habido un fallo en alguno de los pasos anteriores, se mantendrá el incremento en la activación para tratar de solucionar con un trabajo más intenso estos problemas. Si aun así no se solucionan, se producirán conductas estereotipadas consistentes en el disparo excesivo de todos los sistemas fisiológicos y cognitivos.

De forma resumida, de esta propuesta de Seyle cabría destacar dos ideas. Por un lado, el estrés sería una reacción no específica del organismo ante cualquier demanda. Planteando con ello que el estrés sería una reacción básica y general ante múltiples agentes perturbadores, independientemente de la naturaleza de éstos. Por otro, acentúa

la idea de que el estrés es un proceso dinámico, que evoluciona a lo largo de distintos estadios, como resultado de la movilización secuencial de diferentes defensas corporales.

2.3.4. Estrés como respuesta neuro-endocrina (Everly, 1989)

La concepción de activación fisiológica indiferenciada y general de la teoría de Seyle ha sido el aspecto más criticado. De hecho, las concepciones más actuales consideran mecanismos neurales y endocrinos específicos. En concreto, siguiendo el modelo propuesto por Everly (1989), es posible distinguir, dentro de la respuesta fisiológica de estrés, tres ejes:

1) El eje neural. Ante una situación de estrés se provoca de forma inmediata una activación del Sistema Nervioso Autónomo (SNA), fundamentalmente en su rama Simpática, así como un incremento de la activación del Sistema Nervioso Periférico (SNP). La activación de la rama simpática del SNA prepara al organismo para una acción motora inmediata e intensa, provocando, entre otros efectos, dilatación de la pupila, aumento del ritmo cardíaco y respiratorio y de la presión arterial, aumento del flujo de sangre a los músculos activos y al cerebro, acompañado de la disminución del riego sanguíneo de órganos como el tubo digestivo o los riñones y disminución de la secreción salivar. Por su parte, el SNP actúa incrementando la tensión de los músculos estriados necesarios para actuar ante el estresor. La suma de todos estos efectos permite a la persona llevar a cabo una actividad física mucho más intensa de lo habitual. La actuación de este primer eje es muy rápida. Sin embargo, por la propia estructura del

Sistema Nervioso Simpático, éste no puede mantener durante un largo período dicha actividad. La activación se irá reduciendo poco a poco si la situación de estrés desaparece. En el caso de que se mantuviera, este primer eje no puede funcionar mucho tiempo a niveles elevados por lo que entraríamos en la activación del segundo eje.

2) El eje neuroendocrino. Más lento en su actuación, implica la activación de las glándulas suprarrenales, con la consiguiente secreción de adrenalina y noradrenalina. Los efectos son similares a los producidos por la activación del Sistema Nervioso Simpático en el eje neural, si bien su efecto es más lento, pudiéndose mantener durante mucho más tiempo. Crespo y Labrador (2003) señalan que la activación del eje neuroendocrino tiene un valor de supervivencia importante, ya que prepara al organismo para una intensa actividad corporal que le permita responder a las demandas externas, bien haciéndoles frente (luchando), bien escapando de ellas (huyendo). De hecho, la activación de este eje optimiza las condiciones del organismo para la lucha-huida, poniendo en marcha todos sus recursos y preparando al organismo para una posible lesión en el enfrentamiento. Este eje se disparará dependiendo de la percepción de la situación por parte del individuo. Si percibe que puede controlarla, ya sea haciéndole frente o escapando, se pondrá en marcha este eje. En caso de que la persona considere que no puede hacer nada más que soportarla situación de forma pasiva, entonces se activará en su lugar el eje endocrino.

3) El eje endocrino. Aunque incluye otras vías de actuación, la más importante es el eje adrenal-hipofisiario, que supone la secreción de la hormona adrenocorticotrópica (ACTH) que llega a la corteza suprarrenal, provocando la

liberación de corticoides, con efectos sobre muy distintos órganos diana, entre cuyas consecuencias puede señalarse un incremento en la producción de glucosa, supresión del apetito, irritación gástrica, reducción o supresión de mecanismos inmunológicos, sentimientos de depresión e indefensión, etc. El disparo de este eje, más lento y de efectos más duraderos que los dos anteriores, necesita de una situación de estrés más sostenida, por lo que suele asociarse a estresores crónicos. Activándose especialmente cuando la persona percibe o considera que no dispone de estrategias o conductas de enfrentamiento a la situación de estrés.

El estrés implica a todo el organismo y, particularmente, al SNC. Directa o indirectamente, la formación reticular y el sistema límbico activan o inhiben la respuesta de estrés. La formación reticular es la estructura encargada de poner en marcha los mecanismos de alerta de la corteza cerebral, dirigiendo su atención hacia los mensajes sensoriales que recibe. Esta alerta favorece que los estímulos alcancen la corteza, facilitando los comportamientos de adaptación. Cuando se produce una hiperestimulación, el cerebro se fatiga, se bloquea la formación reticular y ello hace que el mensaje quede inhibido, disminuyendo la capacidad de respuesta al estrés.

Por su parte, el sistema límbico desempeña un papel relevante en las respuestas a los estresores, ya que influye en la regulación de la vigilancia y la atención, al inervar las estructuras que determinan emociones y motivaciones. Tiene un papel principal en la memoria y en la afectividad, ya que trata la información sensorial en función del almacén de memoria ya constituido, y lo integra con un contenido afectivo específico relacionado con el sentimiento de placer-displacer, implicando a la intereacción social, a

los comportamientos alimentarios y a los comportamientos sexuales. Juega, pues, un papel importante en la motivaciones sociales y en la modulación de las respuestas a las situaciones estresantes.

La respuesta fisiológica de estrés implica a tres sistemas: endocrino, nervioso e inmunológico, presentando múltiples interconexiones que explican la amplitud de las reacciones del organismo.

La respuesta neuronal se transmite al hipotálamo, estructura nerviosa que actúa de enlace entre el sistema endocrino y el nervioso y en donde se provoca una respuesta hormonal que estimula la hipófisis para que secrete a la sangre otra hormona, la ACTH (corticotropina). Ésta, a su vez, estimula las glándulas suprarrenales, situadas encima de los riñones. Estas glándulas suprarrenales se componen de dos regiones distintas: la parte interna o médula, que secreta adrenalina (epinefrina) y noradrenalina (norepinefrina), y la parte externa o corteza, que secreta corticoesteroides minerales (aldosterona) y glucocorticoides (cortisol). La secreción de las catecolaminas (adrenalina y noradrenalina) corresponde a una movilización de energía en un tiempo corto (por ejemplo, ante una situación de lucha o huida), siendo nociva cuando los comportamientos no pueden ser llevados a cabo. Los glucocorticoides (cortisol) tienen una acción metabólica y antialérgica. El aumento de cortisol se produce muy especialmente en las situaciones de incertidumbre, donde la persona es incapaz de controlar los sucesos y de predecir sus resultados.

Los mineralocorticoides, aldosterona y corticosterona, inducen una vasoconstricción de los vasos sanguíneos. Cuando se dan en exceso, favorecen las enfermedades hipertensivas y pueden provocar lesiones articulares de tipo reumático.

Por otra parte, el hipotálamo actúa directamente sobre el sistema nervioso autónomo, para inducir una respuesta inmediata de estrés, que estimula los nervios sensoriales y a su vez las glándulas suprarrenales. Por tanto, están sometidas a un doble control: por un lado, por el sistema nervioso autónomo (simpático vegetativo) y, por otro, por la hormona secretada por la parte anterior de la hipófisis (ACTH).

Toda esta activación es perjudicial para la salud y reduce la duración de la vida si se mantiene prolongadamente en el tiempo. Por eso, el estrés en niveles elevados y cuando se cronifica conduce a cambios estructurales y fisiológicos y favorece la aparición de graves enfermedades.

En determinadas situaciones de estrés, el funcionamiento anómalo de la hipófisis puede provocar que las glándulas secreten sustancias químicas en exceso, confundiendo al sistema inmunológico. Esto explica que el estrés pueda tener efectos negativos sobre el sistema inmunitario, ya que inhibe sus respuestas, alterando el papel de los leucocitos y su circulación, así como la disminución de su producción. Además, todo este proceso bioquímico interacciona con las estructuras implicadas en el análisis cognitivo y emocional, teniendo al mismo tiempo un papel importante en los niveles de alerta, al entrar el estrés en interacción recíproca con los tres grandes sistemas cerebrales implicados en las funciones cognitivas, afectivas y de decisión.

El punto de interés fundamental de esta propuesta reside en que la activación de uno u otro eje va a depender, además de las características de la situación, de la percepción de la misma por parte del individuo (percepción de control y disponibilidad de estrategias de afrontamiento). En cualquier caso, entender el estrés exclusivamente en términos de activación o perturbación fisiológica supondría considerar erróneamente como estresores muchos aspectos y actividades de la vida cotidiana, y como estrés la activación o los cambios homeostáticos que tales actividades produce indudablemente en el individuo. Ésta es una de las principales críticas que se han formulado a la conceptualización del estrés como mera respuesta fisiológica.

En definitiva, tal como plantea Gutiérrez (2000), dos serían los problemas más importantes que presenta la definición del estrés como respuesta fisiológica. Por un lado, el estrés, así definido, no constituiría un patrón con suficiente entidad o consistencia interna propia. Y por otro, el estrés no posee la necesaria diferenciación con respecto a otros fenómenos. No obstante, existen otros modelos teóricos que, aunque también conciben el estrés como una respuesta del individuo a ciertos estímulos o situaciones, no restringen dicha respuesta a su dimensión fisiológica. Por ejemplo, Labrador y Crespo (1993) descomponen la respuesta de estrés en tres niveles: cognitivo (que incluye los procesos subjetivos de evaluación de la situación), fisiológico (que incluye la actividad de los ejes neural, neuroendocrino y endocrino), y motor (que incluye las distintas formas y estrategias con las que el individuo intenta afrontar la situación) (véase también, Crespo y Labrador, 2003).

2.3.5. Afrontamiento del estrés desde la Teoría Transaccional de Lazarus y Folkman (1984, 2000)

Lazarus y Folkman (1984) proponen un enfoque que enlaza tanto las demandas de la situación cono las reacciones de las personas (ver figura 1). Estos autores son los teóricos más influyentes en el campo del afrontamiento del estrés. Definen el estrés como un concepto organizador útil para explicar un amplio grupo de fenómenos de gran importancia en la adaptación. Consideran el estrés no como a una variable, sino como un conjunto de variables y procesos (Lazarus, 1999). Según esta perspectiva, el estrés psicológico es una relación particular entre el individuo y el entorno que es evaluado por éste como amenazante o desbordante de sus recursos y que pone en peligro su bienestar.

El paradigma de afrontamiento del Estrés de Lazarus y Folkman (2000) es uno de los más comúnmente empleados en la literatura científica. Desde esta teoría, el afrontamiento es entendido como aquellos esfuerzos cognitivos y conductuales constantemente cambiantes que se desarrollan para manejar (minimizar, evitar, tolerar, aceptar) las demandas específicas externas y/ o internas que son evaluadas como excedentes o desbordantes de los recursos del individuo.

El afrontamiento tiene dos funciones principales: regular el distress emocional y cambiar el problema que está causando el malestar. Se pueden distinguir dos tipologías de afrontamiento: el afrontamiento centrado en la emoción y el afrontamiento centrado en el problema.

El afrontamiento dirigido a la emoción está encaminado a regular la respuesta emocional a que el problema da lugar y a minimizar el distress psicológico (Lazarus y Folkman (1984). Incluye estrategias tales como: evitación, minimización, distanciamiento, atención selectiva, comparaciones positivas, extracción de valores positivos a los acontecimientos negativos, aumento del grado de trastorno emocional para pasar a sentirse mejor y reevaluación como forma de atenuar la amenaza, consiguiendo cambiar el significado de la situación, el pensamiento desiderativo, la autoculpación, la atención selectiva o la comparación positiva.

Por el otro, el afrontamiento dirigido al problema se define como el afrontamiento dirigido a la definición del problema, a la búsqueda de soluciones alternativas, consideración de estas alternativas en base a su costo y a su beneficio y, por último, a la puesta en marcha de un plan de acción. Implica un objetivo, un proceso analítico encaminado al entorno incluyendo también las estrategias referentes al interior del sujeto. Este tipo de estrategias son más útiles cuando la situación a afrontar es interpretada como modificable.

Tanto el afrontamiento dirigido al problema como el dirigido a la emoción pueden interferirse entre sí en el proceso de afrontamiento, facilitando o impidiendo cada uno la aparición del otro.

Desde esta perspectiva, no se puede afirmar que una estrategia de afrontamiento es efectiva o inefectiva de manera general. La eficacia va a depender de múltiples

factores, como por ejemplo: del tipo de persona, el tipo de amenaza, la fase vital en la que se da el estresor, el bienestar subjetivo, el funcionamiento social o la salud somática. Por ejemplo, la negación, que puede ser interpretada desde un punto de vista negativo, puede ser positiva en determinadas circunstancias y negativa en otras (Lazarus, 2012).

El proceso de afrontamiento tiene tres características principales. En primer lugar, las observaciones y evaluación se refieren a lo que la persona realmente hace o piensa, y no en lo que la persona suele hacer, haría o debería hacer. En segundo lugar, lo que la persona hace o piensa se evalúa dentro de un contexto concreto, de unas circunstancias particulares. En tercer y último lugar, hacer referencia a los procesos de afrontamiento significa hablar de cambios en los pensamientos y actuaciones de afrontamiento cuando los sucesos estresantes se van desarrollando.

Para Lazarus y Folkman (2000), el proceso de evaluación individual conlleva dos fases: evaluación primaria y evaluación secundaria.

En la evaluación primaria la persona evalúa el significado de un evento o situación y juzga las posibles consecuencias del mismo como irrelevantes, positiva o estresante. Según el tipo de consecuencias que la persona prevea, será más probable el empleo de unos mecanismos de afrontamiento u otros. Se pueden distinguir tres clases de interpretación primaria: irrelevante, positiva-benigna y estresante. La primera categoría está asociada a situaciones sin implicaciones relevantes para el individuo. Por su parte, las evaluaciones positivas generan alegría, amor, felicidad, regocijo o

tranquilidad. Por el contrario, las interpretaciones relacionadas con el estrés pueden incluir la vivencia de estas posibles consecuencias: daño o pérdida, amenaza o desafío.

Se puede considerar daño o pérdida cuando la persona ha recibido algún perjuicio, como por ejemplo una lesión o enfermedad. La vivencia de la situación como un reto, está asociada a mecanismos de afrontamiento como la perseverancia, planificación racional, pensamiento positivo o humor, mientras que la interpretación de una vivencia de una situación como una amenaza conlleva con más facilidad conductas relacionadas con la ansiedad, el miedo, el fatalismo y el pensamiento desiderativo. Ambas evaluaciones, la amenaza y el reto no son excluyentes entre sí, ya que la misma situación puede conllevar a las dos.

La evaluación secundaria, dentro del proceso de afrontamiento, hace referencia al esfuerzo para reconocer los recursos que pueden aplicarse en una situación determinada, lo que conlleva un proceso evaluativo de aquellas opciones afrontativas por el que obtiene la seguridad de que se puede llevar a cabo de forma efectiva.

Janoff-Bulman (1992) incluyó un nuevo tipo de evaluación, denominándola terciaria, para referirse a la evaluación continua, a veces durante años, del impacto de una experiencia. Tanto la evaluación positiva como la negativa coexisten cuando una persona tiene que hacer frente a un evento traumático. Cuando las evaluaciones terciarias son principalmente de tono negativo, tienen más probabilidad de estar acompañadas de consecuencias negativas (ansiedad y desesperación). En cambio, cuando las evaluaciones son positivas, Janoff-Bulman (1992) defiende la hipótesis de

que es más probable que se generen nuevas formulaciones creativas, que contribuyan a afrontar el difícil proceso de reconstruir el mundo interno de la víctima y a generar un nuevo enfoque vital y un cambio de las prioridades.

Existen principalmente dos líneas predominantes del afrontamiento. El primer enfoque pone énfasis en la orientación o el foco, diferenciando entre formas de afrontamiento activas versus formas pasivas de afronta un problema. Una segunda clasificación, es la efectuada entre respuestas por aproximación, entendidas como esfuerzos cognitivos o conductuales para manejarse directamente con el evento estresante, y respuestas de afrontamiento por evitación que incluye los esfuerzos cognitivos y/o conductuales para evitar pensar en el estresor o para intentar reducir la tensión a través de conductas de escape (Moos, 1993).

Por su parte, Lazarus (1993) propone una serie de características de los procesos de afrontamiento:

1. El afrontamiento es complejo, las personas utilizan muchas de las estrategias en los eventos estresantes.

2. El afrontamiento depende de la interpretación sobre lo que puede hacerse para cambiar la situación. Si la interpretación implica que se puede hacer algo, predominarán las estrategias de afrontamiento dirigidas hacia el problema, mientras que si la interpretación implica que no se puede hacer nada, predominarán las estrategias centradas en la emoción.

3. Cuando el tipo de evento estresante se mantiene constante, los hombres y las mujeres muestran patrones de afrontamiento similares, a pesar de los prejuicios sociales.

4. Algunas estrategias de afrontamiento son más estables que otras en diferentes eventos estresantes, mientras que otras están más vinculadas a contextos estresantes particulares. Por ejemplo, el pensamiento positivo es relativamente estable y depende de la personalidad, mientras que la búsqueda de apoyo social es inestable y depende del contexto social.

5. El afrontamiento actúa como un potente mediador ante las respuestas emocionales. Las respuestas positivas están asociadas con algunas estrategias de afrontamiento y las negativas con otras.

6. La utilidad del patrón de afrontamiento varía en función del tipo de estresor, el tipo de personalidad y de la modalidad de resultado estudiada.

2.3.6. Reformulación de la Teoría Transaccional: Afrontamiento desde la Psicología Positiva (Folkman y Greer, 2000)

El modelo original de Lazarus y Folkman (1966, 1984) subraya que el afrontamiento (centrado en el problema o en la emoción) que contribuye a la resolución de un evento estresante está asociado a un estado psicológico positivo, mientras que las

estrategias que no conllevan la resolución del evento estresante puede originar estrés psicológico.

Tradicionalmente, la investigación sobre el estrés psicológico se ha centrado principalmente en síntomas psiquiátricos tales como la ansiedad y la depresión. Es evidente que los eventos y circunstancias difíciles pueden producir distress, ansiedad, miedo, tristeza, depresión, culpabilidad, irritabilidad, enfado, pensamientos intrusivos, fatiga, tensión, dolor y malestar general e incluso problemas psiquiátricos (Tedeschi y Calhoun, 2004). Sin embargo, el énfasis en este tipo de sintomatología solo revela una parte de la vivencia de las personas que tienen que afrontar situaciones de enfermedad.

La concepción de que el sufrimiento y el distress pueden ir asociados a cambios positivos está en la base de concepciones históricas relacionadas con la religión judía, cristiana, hinduista, budista e islámica (Tedeschi y Calhoun, 1995). Actualmente existe un creciente número de estudios centrados en los aspectos positivos del proceso de estrés, tales como la transformación personal o el crecimiento (Folkman y Moskowitz, 2000).

Muchos autores defienden la necesidad de construir un paradigma más inclusivo que albergue tanto la psicopatología y los estados psicológicos negativos, como los atributos o características psicológicas positivas de las personas (Fernández Ballesteros, 2003). Es en este punto del afrontamiento donde Folkman (1997) sugiere una modificación en el modelo de afrontamiento del estrés.

Folkman y Greer (2000) proponen una expansión del modelo clásico de Lazarus y Folkman (1984). Basándose en investigaciones con parejas de enfermos de SIDA, Folkman (1997), sugieren que tanto las emociones positivas como las negativas coexisten durante periodos de afrontamiento ante niveles elevados de estrés. A excepción del periodo inmediatamente posterior a la muerte de la pareja, se destaca la habilidad para conseguir estados mentales positivos tanto en el proceso de la enfermedad como en el proceso de duelo. Teniendo en cuenta este aspecto, enfatizan la necesidad de incluir tanto el distress como los estados psicológicos positivos en los paradigmas de investigación sobre afrontamiento.

Desde este enfoque, diferentes estudios han comprobado que, en situaciones estresantes como estar hospitalizado con una enfermedad crónica (Viney, 1986), sufrir daño en la médula espinal (Silver y Wortman, 1987), tener hijos con sida (Folkman, 1997), padecer un cáncer (Schroevers, Kraaij y Garnefski, 2011), ser una persona mayor con una enfermedad crónica o discapacidad (Schanowitz y Nicassio, 2006) o ser padres con un hijo con un problema médico (Abbott y Mederith, 1986; Affleck, Tennen y Gershman, 1985), se puede experimentar sentimientos positivos de igual manera, o incluso con mayor frecuencia que sentimientos negativos.

Un concepto clave dentro de la Psicología positiva es el crecimiento post-traumático, el cual hace referencia a los cambios psicológicos positivos experimentados como resultado de tener que enfrentarse a circunstancias que suponen un alto reto a la persona (Tedeschi y Calhoun, 2004). Una experiencia traumática puede amenazar y

hacer que el sujeto ponga en entredicho las creencias y asunciones que tiene sobre el mundo (Triplett, Tedeschi, Cann, Calhoun y Reeve, 2011).

Los estudios realizados han puesto en evidencia el hecho de que el crecimiento percibido parece estar relacionado con una mayor presencia de afecto positivo y con menores niveles de depresión, aunque también con mayor número de pensamientos intrusivos sobre los eventos vitales estresantes. El crecimiento no parece estar asociado a la ansiedad, índices generales de distress, calidad de vida o a la salud física percibida (Park y Helgeson, 2006).

Una variable importante a la hora de tener en cuenta el crecimiento post-traumático es el género. En este sentido, Vishnevsky, Cann, Calhoun, Tedeschi y Demakis (2010), tras realizar un meta-análisis de 70 estudios (n=16.076), se apreció una diferencia de género moderada posicionando a las mujeres con mayores puntuaciones en el constructo estudiado. Además, observaron que la única variable moderadora significativa fue la edad, en el sentido de que las mujeres experimentaban mayor crecimiento post-traumático cuanto mayor era la edad. Existen otra serie de variables que de manera consistente están asociadas al crecimiento post-traumático, tales como el afrontamiento centrado en el problema, la aceptación, la reinterpretación positiva, el optimismo, la religión y el afecto positivo. Los estudios también revelan asociaciones poco consistentes entre el crecimiento post-traumático y variables como la depresión, la ansiedad y el trastorno por estrés post-traumático (Linley y Joseph, 2004).

La integración de los estados psicológicos positivos se realiza a través de tres vías. La primera de ellas describe los estados psicológicos positivos como resultado de los procesos basados en el significado que los sujetos utilizan para afrontar el estresor en sí. De acuerdo con esta nueva reformulación, se subraya la importancia de las estrategias de afrontamiento basadas en el significado. Este tipo de estrategias ayudan a que la persona renuncie a objetivos insostenibles y formule otros nuevos que den sentido a los hechos que le están sucediendo. A través del uso de esta estrategia, las personas pueden mantener un funcionamiento psicosocial positivo en situaciones en las cuales el individuo es incapaz de lograr una resolución favorable del acontecimiento estresante. De acuerdo con esta perspectiva, el afrontamiento basado en el significado incluye estrategias como la reevaluación positiva, el desarrollo de nuevos objetivos o las creencias religiosas y espirituales. Estas estrategias permiten al individuo experimentar un funcionamiento psicosocial positivo durante el proceso de afrontamiento de estados emocionales negativos (Folkman y Greer, 2000).

La segunda vía de cara a integrar las emociones positivas en el modelo de afrontamiento describe al mismo como una respuesta al estrés, no como una respuesta a las condiciones que crean el distress. Los estados psicológicos negativos asociados con estrés significativo pueden motivar a las personas a crear estados psicológicos positivos con el objetivo de obtener alivio, aunque sea momentánexamente, del estrés.

Por último, la tercera vía supone volver desde el estado psicológico positivo a la fase de interpretación y afrontamiento. El proceso de afrontamiento que genera estados

psicológicos positivos y los estados en sí mismos pueden ayudar a renovar los esfuerzos centrados en la emoción y en el problema a la hora de encarar la condición estresante.

Dentro de este modelo, se describen diferentes aspectos a tener en cuenta. El primero de ellos hace referencia a las variables personales o disposicionales, que influyen en la evaluación primaria del estresor. Este tipo de variables son especialmente relevantes para la habilidad del individuo para generar retos en los cuales se perciban las posibles consecuencias favorables. Dentro de esta categoría, se pueden encontrar conceptos clave como la sensación de control (locus de control interno), la fortaleza personal, optimismo disposicional y sensación de dominio.

El segundo aspecto a tener en cuenta es la creencia de eficacia situacional. Este término introducido por Bandura (1982), incluye la eficacia de resultado o creencia de que hay una estrategia que puede conllevar la obtención del resultado deseado y la autoeficacia o creencia que el individuo tiene acerca de si puede o no llevar a cabo dicha estrategia.

El último aspecto relevante hace referencia a los procesos de afrontamiento que ayudan a desarrollar y mantener una sensación de bienestar psicológico a pesar de las circunstancias negativas. Hay cada vez más evidencia que muestra que los afectos positivos también se dan durante los procesos de estrés crónico (Folkman y Moskowitz, 2000). Estos estudios valoran cómo diferentes mecanismos como la reevaluación positiva, las estrategias de afrontamiento en el problema o la creación eventos positivos ocurren dentro de situaciones vitales difíciles (Viney, 1986; Silver y Wortman, 1987).

Las emociones positivas suponen un importante facilitador ante el afrontamiento adaptativo y el ajuste del estrés crónico y agudo.

Entre las estrategias cognitivas que se han asociado con los afectos positivos, destacan la reinterpretación positiva y la estrategia de afrontamiento centrada en el problema (Folkman y Moskowitz, 2000). En primer lugar, la reinterpretación positiva está ligada a estrategias que reformulan la situación desde una perspectiva positiva, concepto similar a la obtención de beneficios o la comparación hacia abajo (Affleck y Tennen, 1996). En segundo lugar, la estrategia de afrontamiento centrada en el problema descrita por Lazarus y Folkman, (1984) hace referencia a los esfuerzos dirigidos a la resolución o manejo del problema causante del estrés, incluyendo estrategias como la búsqueda de información, toma de decisiones, planificación, resolución de conflictos, esfuerzos por adquirir habilidades, acciones instrumentales y orientadas a la tarea.

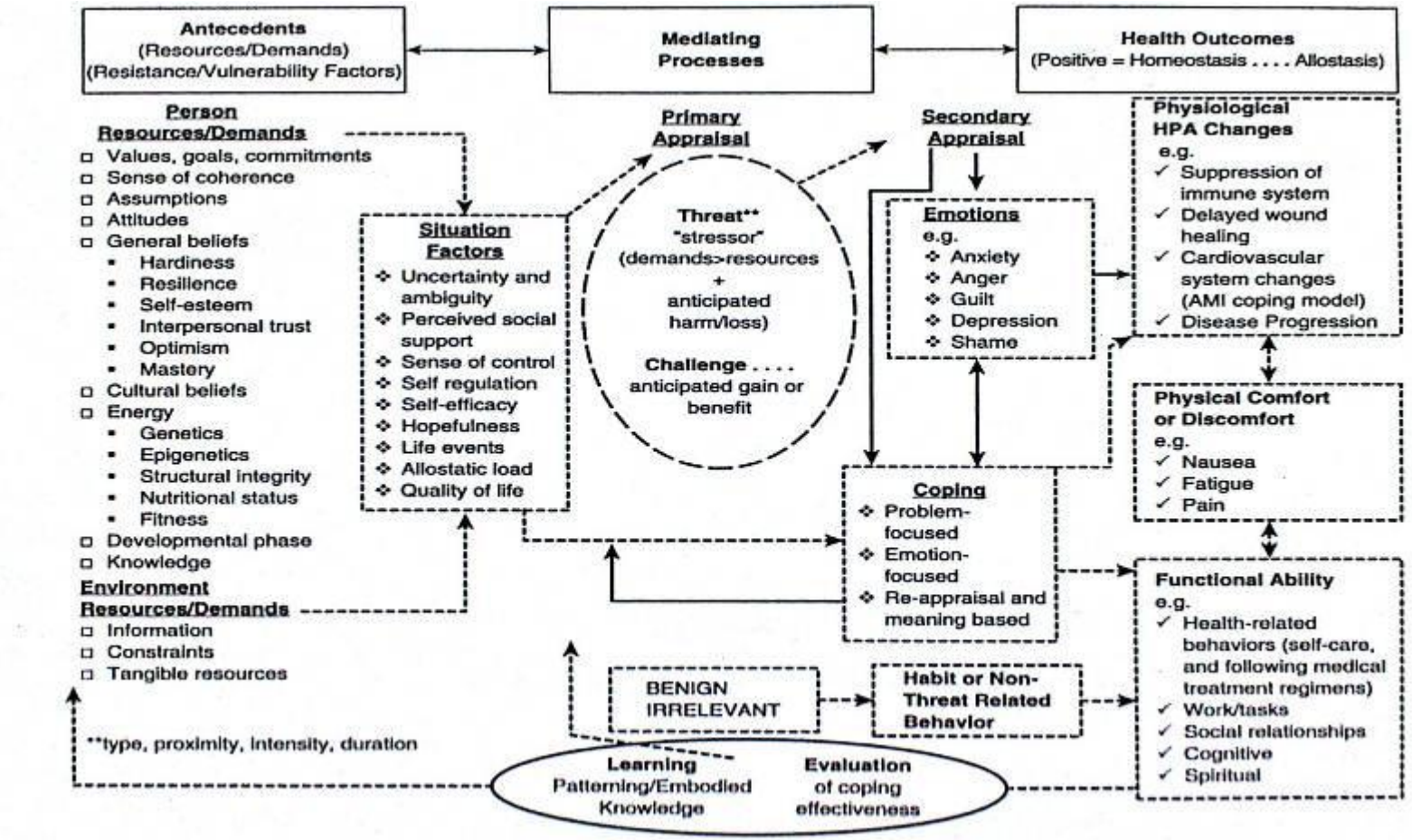


Figura 1. Modelo Conceptual de Factores Relacionados con el Afrontamiento del Estrés (Lazarus, 1996; Rice, 2012)

Folkman y Moskowitz (2000) tras una revisión sobre diferentes estudios sobre el afrontamiento desde el punto de vista del afecto positivo, señalan una serie de conclusiones que se describen a continuación. Por una parte, describen que el afecto positivo promueve la creatividad y flexibilidad a la hora de resolver problemas y facilita el procesamiento de la información. A nivel fisiológico, el afecto positivo protege contra las consecuencias físicas adversas del estrés compensando los daños potenciales de los afectos negativos (Fredrikson y Levenson, 2008). Además, ayuda a proteger de las respuestas no adaptativas asociadas al estrés en varios niveles: neural, endocrina e inmune (Epel, McEwen y Ickovies, 1998). Por último, las experiencias positivas que se pueden dar en situaciones estresantes pueden interrumpir el circuito de rumiación circular y prevenir la depresión (Gross y Muñoz, 1995).

2.3.7. Modelo de resiliencia familiar ante el estrés (McCubbin et al., 2003)

Un concepto fundamental para entender el afrontamiento es el de resiliencia, entendida como la habilidad de las personas que están expuestas a un evento disruptivo, como la muerte de un ser querido, para mantener un nivel psicológico y físico relativamente estable (Bonanno, Moskowitz, Papa y Folkman, 2005). La situación genera un riesgo que es capaz de producir consecuencias mejores que las que se hubiesen obtenido en ausencia de riesgo. Los individuos que muestran resiliencia no evitan simplemente las consecuencias negativas ligadas a los riesgos, sino que muestran una correcta o mejor adaptación a la adversidad. Este concepto implica que muchas personas o familias se caracterizan por poseer habilidades interpersonales, fuerza y

recursos psicológicos que les capacitan para responder ante los retos (Cowan, Cowan y Shulz, 1996; Rutter, 1987).

El modelo de resiliencia familiar ante el estrés (McCubbin, Balling, Possin, Frierdich y Bryne, 2002) se desarrolló con el objetivo de explicar por qué algunas familias muestran mayor resiliencia que otras y son capaces de ajustarse y adaptarse al estrés y a las crisis, teniendo en cuenta a la familia como unidad. En este modelo se enfatizan dos capacidades: por un lado los recursos familiares o lo que la familia tiene y por otro lado las estrategias de afrontamiento conductuales, es decir, lo que lleva a cabo (McCubbin et al., 2003). El afrontamiento se entiende desde este modelo como los esfuerzos cognitivos y conductuales mediante los cuales una persona y su familia intentan reducir o manejar las demandas que se le exige a la familia. En este proceso, la familia intenta responder directamente a las excesivas demandas y a los mermados recursos, siendo consciente de que son necesarios una serie de cambios sistémicos, así como restaurar en cierta medida la estabilidad funcional.

El modelo incluye dos fases: ajuste y adaptación. La primera fase se compone de los siguientes factores: estresor, vulnerabilidad familiar, tipología de funcionamiento familiar, recursos familiares, interpretación de la familia sobre el estresor y estrategias de afrontamiento de la familia. Dichos componentes interactúan entre sí determinando el nivel de ajuste familiar. Si el sistema familiar logra el éxito a la hora de responder al estresor, la familia afronta la situación y produce un resultado positivo denominado ajuste positivo (McCubbin y McCubbin, 1993).

La fase de adaptación los componentes que entran en juego son los siguientes: acumulación de demandas del sistema familiar generadas por la enfermedad, cambios del ciclo familiar y dificultades no resueltas; la tipología de familia; los recursos y el apoyo social de la misma; el esquema interpretativos de la familia acerca de la situación y las estrategias de afrontamiento familiar. La adaptación familiar es el resultado de los esfuerzos de la familia a lo largo del tiempo para hacer frente a las necesidades de los miembros de la familia para lograr un desarrollo personal del sistema familiar y la interacción con su entorno.

2.3.8. Modelo de las etapas del afrontamiento del duelo (Kübler-Ross, 2000)

Kübler-Ross (2000) propone uno de los más importantes modelos que describen las fases que una persona suele experimentar como consecuencia de un proceso de duelo o de enfermedad severa propia o de otro miembro de la familia. En este sentido, la primera reacción ante la noticia de la existencia de una enfermedad crónica es la de shock, tanto físico como psicológico, y usualmente es de corta duración. A continuación, puede darse una fase de negación, más prolongada en el tiempo y que sirve como protectora de las implicaciones de la discapacidad relacionadas, por ejemplo, con el autoconcepto y la estabilidad emocional. Si esta fase se prolonga en el tiempo volviéndose inadaptativa, puede interferir en el tratamiento, minando la esperanza necesaria para el proceso de rehabilitación (Lindemann, 1987).

La tercera fase se caracteriza por la ira, que puede ir paralela o seguida de la negación. Es una respuesta al daño psicológico y físico, a la injusticia percibida y al

hecho de que la persona se vea obligada a cambiar sus circunstancias vitales y del propio Yo. Es importante ver esta etapa como parte del proceso y no como un ataque personal, aunque, si se prolonga demasiado, es aconsejable el apoyo psicológico, como en el caso de la siguiente fase: la depresión. Puede ocurrir en cualquier punto del proceso, refleja la percepción de la persona de la desesperación y de la vida que le espera y puede acompañarse de culpabilidad. La última fase del proceso es la de adaptación y puede ser positiva o negativa.

2.3.9. Modelo de la perspectiva de cambio (Paterson, 2001)

Desde esta perspectiva (Paterson, 2001) se defiende que la adaptación a una enfermedad crónica es un proceso de cambio continuo en el que la persona experimenta un proceso dialéctico entre ellos mismos y su entorno. Es importante tener en cuenta que es la percepción de la realidad y no la realidad en sí misma, la base desde la que la persona interpreta y actúa con respecto a la enfermedad. La perspectiva de tener que afrontar una enfermedad crónica incluye, a la vez, estados de enfermedad y de bienestar.

Una perspectiva es una representación de ideas, percepciones, expectativas, actitudes y experiencia sobre lo que significa para la persona la enfermedad crónica en un contexto específico. Cada perspectiva puede ser delineada por círculos superpuestos en los que tanto la enfermedad como el bienestar son prioritarios. Cuando el foco se encuentra en la enfermedad, la atención se centra en el sufrimiento, en la pérdida y en la carga asociada, mientras que si el foco de atención se dirige hacia el bienestar, la

enfermedad es percibida como una oportunidad para cambiar aspectos importantes como las relaciones con el entorno y con los demás.

2.3.10. Teoría de la Tristeza Crónica (Olshansky, 1952; Eakes et al., 1998)

Esta concepción, introducida por Olshansly (1952), hace referencia a las diferentes fases en forma de ondas por las que tienen que vivir los padres y madres, cuando tienen que afrontar el hecho de tener un hijo/a con algún tipo de enfermedad severa. La tristeza crónica supone una percepción de tristeza y preocupación a lo largo del tiempo en una situación incierta, que no tiene un fin previsible. La tristeza es cíclica y recurrente, es activada interna o externamente conllevando sentimiento de pérdida y miedo y que conlleva una preocupación progresiva que puede intensificarse (Eakes, Burke y Hainsworth, 1998).

Al contrario que las teorías tradicionales (Kübler y Ross, 2000) que defienden que la resolución es el resultado necesario y normal para reacciones de duelo, la teoría de la tristeza crónica (Eakes et al., 1998; Poysky y Kinnett, 2009) propone que es normal y saludable que las personas re-experimenten los mismos sentimientos relacionados con el duelo que aparecieron en el proceso de duelo que acompañó al diagnóstico inicial. Desde este modelo, se propone que el duelo tiene un carácter cíclico por naturaleza y permite que los periodos de alegría y satisfacción sigan a momentos de mayor tristeza.

En este sentido, Vaughn y Mendell (1986) entrevistaron a 15 madres de niños con enfermedad de Duchenne desde el modelo de duelo de Kubler-Ross (2000), el cual sugiere que los pacientes pasan por unas fases definidas a la hora de afrontar la muerte o una enfermedad crónica. Las entrevistas indicaron que las respuestas de las madres no se ajustaban a dicho modelo. Sí que sugieren la utilidad de tener en cuenta cuatro etapas a raíz de la experiencia de la muestra estudiada. En primer lugar, aparecen sentimientos de frustración y miedo, incluso desde antes del conocimiento oficial del diagnóstico. Este hecho se debe a que las madres sienten que algo no va bien con sus hijos y además, los servicios sanitarios no son capaces de detectar la problemática. Otras madres asocian la frustración y el miedo al momento del diagnóstico. La sensación de desconocimiento conlleva una búsqueda de información en todo tipo de fuentes.

La siguiente fase que las madres experimentan es calificada como de latencia e indefensión. Surgen sentimientos de depresión, desesperanza y culpabilidad. Alguna madre describe este periodo como de espera. En muchos casos, esta fase da lugar a que las madres puedan centrar su atención y energía en el desarrollo de otras actividades, como, por ejemplo, formar parte de asociaciones de afectados o implicarse en nuevas actividades y objetivos. Los autores etiquetan esta fase como de afrontamiento y de realización de conductas dirigidas hacia objetivos.

Finalmente, las madres alcanzan la última etapa, que conlleva la aceptación especialmente de la realidad de que su hijo tiene distrofia muscular de Duchenne y de las implicaciones futuras que conlleva. Las madres que llegan a esta etapa se sienten,

aunque no preparadas mente a la muerte de su hijo, más seguras de poder hacer frente a esa dura realidad.

Las madres siempre van a mantener cierto nivel de esperanza durante todas las etapas descritas en el duelo. De hecho, muestran cierto grado de enfado cuando sienten que esa esperanza es puesta en duda por otras personas o por la situación y especialmente cuando se les habla sobre predicciones relacionadas con un marco temporal rígido de deterioro.

Finalmente, en línea con la teoría de la tristeza crónica (Eakes et al., 1998) los autores de este estudio destacan el hecho de que la evolución de la enfermedad de Duchenne pasa por periodos de estabilidad seguidos de cambios repentinos y pérdida de funciones y deterioro físico. Durante la fase de estabilidad, las madres pueden experimentar un grado de bienestar que se ve truncado por un avance drástico en la enfermedad, lo que conlleva un impacto emocional que las madres tienen que afrontar de nuevo, tal como lo hizo anteriormente. En este sentido, un buen signo de afrontamiento es que los síntomas que acompañan a la madre en cada nueva recaída, sean cada vez menos intensos y se lidien con mayor rapidez.

Otros autores como Robins (1991), también han subrayado que la adaptación a la distrofia muscular de Duchenne no conlleva el mismo proceso que el descrito en la literatura (Kluber-Ross, 1969). En la misma línea que en los estudios descritos en los párrafos anteriores, se resalta la idea de que no todas las familias sienten las mismas

cosas ni de la misma manera y que no existe una manera de ajuste más o menos efectiva que otras.

En la misma línea, autoras como Wortman y Cohen (1989) hacen hincapié en que todas las personas no tienen por qué pasar por las mismas fases de duelo, durante periodos de tiempo similares, empezando con un intenso estrés seguido de una recuperación con el tiempo. Los patrones alternativos suelen considerarse desde estos puntos de vista como patológicos. Wortman y Cohen (1989), sugieren que existen al menos tres tipos de patrones de adaptación: a) proceso que parte de un elevado nivel de estrés hacia su disminución, b) proceso en el que no aparece un estrés intenso inmediatamente después del suceso y c) proceso en el que la persona continúa con un elevado nivel de estrés durante un periodo de tiempo muy prolongado.

Desde estas perspectivas, el ajuste a una distrofia muscular es un proceso continuo, caracterizado por una serie de fluctuaciones asociadas a los cambios evolutivos y a la naturaleza progresiva de la enfermedad. La familia, a partir del diagnóstico inicial, se encuentra repetidamente con una serie de pérdidas físicas y emocionales, que conllevan nuevas fases de afrontamiento. De esta manera, el proceso de ajuste se tiene que entender como un conjunto de fases con una serie de conflictos, cambios y pérdidas y la resolución de los mismos, y no tanto como un proceso de ajuste con un patrón de inicio y final establecidos.

2.4. Clasificación de las estrategias de afrontamiento

A lo largo de la literatura se pueden encontrar diferentes clasificaciones de los mecanismos de afrontamiento más frecuentemente utilizados por las personas que tienen que hacer frente a una crisis vital importante, como el diagnóstico de una enfermedad degenerativa. Debido a la complejidad del tema, no existe una única manera de conceptualizar y clasificar los mecanismos de afrontamiento. Diferentes autores han propuesto sus propios mecanismos, definiciones y taxonomías.

En el meta-análisis efectuado por Roesch y Weiner (2001) se revisaron un de 27 estudios sobre afrontamiento en personas con discapacidad física, a partir de la taxonomía de estrategias de afrontamiento aproximativo versus evitativo y afrontamiento centrado en el problema versus en la emoción, tal y como se refleja a continuación.

- Afrontamiento aproximativo: afrontamiento activo, optimismo, autoeficacia, búsqueda información, búsqueda de apoyo, autocontrol, interpretación positiva, cumplimiento médico, planificación, supresión de actividades, aceptación, resolución de problemas.

- Afrontamiento evitativo: pensamiento desiderativo, negación, evitación comportamental, evitación cognitiva, autoculpación, religiosidad, minimización de la amenaza, distanciamiento/distracción, externalización emocional, alcohol/drogas, humor e indefensión.

- Afrontamiento centrado en el problema: afrontamiento dirigido a la definición del problema, a la búsqueda de soluciones alternativas o a la consideración de estas alternativas en base a su costo y a su beneficio. Implica un objetivo, un proceso analítico encaminado al entorno incluyendo también las estrategias referentes al interior del sujeto (Folkman y Lazarus, 1980). Incluye: la búsqueda de apoyo instrumental, el afrontamiento activo, la planificación o la búsqueda de soluciones.

- Afrontamiento centrado en la emoción: encaminado a regular la respuesta emocional a que el problema da lugar. Entre las conductas que incluyen están: evitación, minimización, distanciamiento, atención selectiva, comparaciones positivas, extracción de valores positivos a los acontecimientos negativos, aumento del grado de trastorno emocional para pasar a sentirse mejor y reevaluación como forma de atenuar la amenaza consiguiendo cambiar el significado de la situación (Folkman y Lazarus, 1980). Incluye: optimismo, auto-eficacia, búsqueda de apoyo emocional, auto-control, reinterpretación, aceptación, minimización de la amenaza, pensamiento desiderativo, búsqueda de otras recompensas, religión y humor.

Tanto el afrontamiento dirigido al problema como el dirigido a la emoción pueden interferirse entre sí en el proceso de afrontamiento, facilitando o impidiendo cada uno la aparición del otro.

Por su parte, Burr y Klein (1994), tras una revisión de diferentes estudios sobre estrategias de afrontamiento, proponen una marco conceptual que incluye las siguientes estrategias: aceptación de la situación y de los otros, búsqueda de información, redefinición del problema, expresión de sentimientos, evitación de sentimientos negativos, sensibilización hacia las necesidades de los demás, cohesión, adaptabilidad, cooperación, tolerancia, apertura, escucha, sensibilidad hacia la comunicación no verbal, cumplimiento de las expectativas de la comunidad, religiosidad, incremento de la fe, desarrollo de la autonomía, independencia, autosuficiencia y mantenimiento de hobbies.

2.5. Evaluación del afrontamiento

Existen numerosas escalas y cuestionarios que tratan de identificar las estrategias de afrontamiento que las personas emplean para hacer frente al estrés. A continuación, se describen algunos de los instrumentos aplicados en población general para posteriormente hacer mención a aquellos adaptados para población clínica. El objetivo de este apartado es hacer una revisión de los principales instrumentos que evalúan afrontamiento, con el fin de recopilar las estrategias más frecuentemente citadas y que van a servir como referencia para este estudio, tal como se puede observar en el apartado anterior.

2.5.1. Evaluación del afrontamiento en población general

En relación a los instrumentos que evalúan el afrontamiento a nivel general destaca el Cuestionario de Formas de Afrontamiento de Acontecimientos Estresantes (C.E.A.) elaborado por Rodríguez-Marín, Terol, López-Roig y Pastor (1992) a partir de trabajos previos a partir de la elaboración del *Ways of Coping Checklist* (WCCL) de Lazarus y Folkman (Folkman y Lazarus, 1980, 1985; Lazarus, 1990). El C.E.A. consta de 36 ítems con un formato de respuesta tipo Likert (1= nunca; 2 = rara vez; 3= algunas veces; 4= a menudo; 5= casi siempre), en los que se recogen diversas conductas de afrontamiento ante una situación estresante, en concreto: 1) pensamiento positivo; 2) culpación de otros; 3) pensamiento desiderativo; 4) búsqueda de apoyo social; 5) búsqueda de soluciones; 6) expresión emocional; 7) contabilización de ventajas; 8) religiosidad; 9) autoculpación; 10) resignación y 11) escape. El cuestionario está compuesto por 36 ítems con respuesta tipo Likert (1-5). La fiabilidad total del cuestionario mediante alfa de Cronbach fue de 0.75.

Por su parte, el Inventario de Respuestas de Afrontamiento de Moos, (1993) combina dos perspectivas al evaluar el afrontamiento de un sujeto, por un lado considera la orientación o el foco del afrontamiento y por el otro el método de afrontamiento. El Inventario se compone de 48 ítems con una escala entre 0 y 3, cuyas opciones varían entre “Nunca” y “Muchas Veces”. A continuación se detallan las ocho respuestas de afrontamiento que evalúa el cuestionario: 1) análisis lógico; 2) revalorización positiva; 3) búsqueda de orientación y apoyo; 4) resolución de problemas; 5) evitación cognitiva; 6) aceptación/resignación; 7) búsqueda de

gratificaciones alternativas y 8) descarga emocional. El alpha de Cronbach global de este instrumento es de 0.85.

El inventario COPE (Carver, Scheier y Weintraub, 1989) evalúa las formas en las que las personas responden al estrés mediante los siguientes factores: 1) afrontamiento activo; 2) planificación; 3) supresión de actividades competitivas; 4) búsqueda de apoyo social instrumental; 5) supresión de afrontamiento; 6) búsqueda de apoyo social emocional; 7) re-evaluación positiva; 8) aceptación; 9) negación; 10) religiosidad; 11) expresión de sentimientos; 12) liberación comportamental y 13) liberación mental. La consistencia interna media del instrumento es de 0.80.

El cuestionario *Brief Religious Coping* (Pergament et al., 1998) evalúa el grado en el que la persona emplea estrategias de afrontamiento religioso para afrontar eventos vitales estresantes. Se compone de siete ítems de afrontamiento religioso positivo (p.e.: búsqueda de una conexión más fuerte con Dios) y de siete ítems de afrontamiento religiosos de tono negativo (p.e.: sentimiento de ser castigado por Dios por mi falta de devoción). Los participantes tienen que rellenar el cuestionario respondiendo a través de las siguientes opciones de respuesta: no en absoluto, alguna vez, bastantes veces y muchas veces. Los ítems positivos se generaron a partir de las subescalas del RCOPE original e incluyen: conexión espiritual, búsqueda de apoyo espiritual, perdón religioso, afrontamiento religiosos colaborativo, interpretación religiosa benevolente, purificación religiosa y enfoque religioso (Pargament, Koenig y Pérez, 2000). Los ítems se generaron a partir de las siguientes subescalas: 1) descontento espiritual; 2) reinterpretación de Dios castigador; 3) religiosidad interpersonal negativa y 4)

reinterpretación de la fuerza de Dios. El cuestionario alcanza coeficientes alpha entre 0.69 y 0.87 para las escalas negativas y positivas, respectivamente para pacientes hospitalarios mayores de 55 años (Pargament et al., 1998). Los valores de consistencia interna de las escalas alcanzan niveles similares, de 0.85 para las escalas de afrontamiento religioso positivo y de 0.73 para las escalas de tono negativo.

El Cuestionario de Afrontamiento del Estrés-CAE (Chorot y Sandín, 2003) es una medida de autoinforme diseñada para evaluar siete estilos básicos de afrontamiento: 1) solución del problema; 2) autofocalización negativa; 3) reevaluación positiva; 4) expresión emocional abierta; 5) evitación; 6) búsqueda de apoyo social y 7) religión. Los coeficientes de fiabilidad de Cronbach para las 7 subescalas variaron entre 0,64 y 0,92 (media = 0,79). Un análisis factorial de segundo orden evidenció una estructura de dos factores, que representaban los estilos de afrontamiento racional y focalizado en la emoción.

2.5.2. Evaluación del afrontamiento en población clínica

A continuación se detallan algunos de los cuestionarios que evalúan el afrontamiento en diferentes poblaciones clínicas.

McCubbin et al. (1983) desarrollaron el *Coping Heatlh Inventory for Parents* para evaluar la capacidad de afrontamiento en padres a la hora de enfrentarse al hecho de que su hijo tiene una enfermedad crónica. Dicho cuestionario consta de 45 ítems tiene tres escalas que evalúan las siguientes dimensiones: 1) mantenimiento de la

integración familiar, cooperación y definición optimista de la situación; 2) mantenimiento del apoyo social, de la autoestima y de la estabilidad psicológica y 3) comprensión de la situación médica a través de la comunicación con otros padres y de las consultas con especialistas médicos. Presenta una consistencia interna de 0.79.

En la misma línea, McCubbin, Olson y Larsen (1991) crearon el cuestionario *Family Crisis Oriented Personal Scales-F-Copes* con el fin de evaluar el afrontamiento en padres y madres con niños con necesidades especiales. Se trata de una escala de 30 ítems que describe una variedad de conductas de afrontamiento que los sujetos pueden usar en momentos de estrés o crisis, incluyendo: 1) la búsqueda de apoyo social; 2) la reestructuración; 3) la búsqueda de apoyo espiritual; 4) la movilización para lograr y aceptar ayuda y 5) la interpretación positiva. La fiabilidad general calculada a partir del alpha de Cronbach ha sido estimada en un rango entre 0.77 y 0.86.

Otra herramienta de medida del afrontamiento es la *Revised Ways of coping Checklist* (RWCCL, Vitaliano, Russo, Carr, Maiuro y Becker, 1985). Se trata de una medida de autoinforme de 57 ítems que evalúa el afrontamiento cognitivo y conductual dentro del contexto de un estresor en concreto. Se compone de ocho subescalas: 1) afrontamiento centrado en el problema; 2) pensamiento desiderativo; 3) búsqueda de apoyo social; 4) evitación; 5) autoculpabilidad; 6) culpación de otros;7) focalización en lo positivo y 8) religiosidad. Este cuestionario ha sido validado en población clínica, concretamente con pacientes con esclerodermia (Malcarne y Greenbergs, 1996). Las subescalas tienen una fiabilidad y validez concurrente y de constructo aceptables: 0.74-0.88 (Vitaliano et al., 1985).

Por su parte, Petersen, Schmidt, Bullinger y el grupo DISABKIDS (2004) desarrollaron el CODI (*Coping with a Disease*), que incluye 28 ítems con 6 escalas que valoran las siguientes estrategias de afrontamiento: 1) aceptación; 2) evitación; 3) estrategia cognitiva-paliativa; 4) distanciamiento; 5) reacción emocional y 6) pensamiento desiderativo. Los participantes respondían a los ítems en una escala del 1 al 5 y posteriormente transformados en una escala del 0 al 100. El coeficiente alpha se encuentra en un rango entre 0.72 y 0.88. Este cuestionario ha sido adaptado en población infantil y adolescente con diagnósticos diversos: asma, artritis, epilepsia, parálisis cerebral, diabetes, dermatitis atópica o fibrosis quística.

En el colectivo específico de pacientes con cáncer, el cuestionario *The Mental Adjustment to Cancer*- MAC, (Greer y Watson, 1987) evalúa las respuestas de afrontamiento de pacientes con cáncer. Está compuesto por 40 ítems tipo Likert (1-definitivamente no se aplica a mí; 4-definitivamente sí se aplica a mí) y cinco escalas: 1) espíritu de lucha; 2) indefensión-desesperanza; 3) preocupación ansiosa; 4) fatalismo y 5) evitación.

En relación a este último cuestionario, Ahlstrom y Sjodén (1994) intentaron modificar el *Mental Adjustment to Cancer Scale,* (Greer y Watson, 1987) para evaluar el afrontamiento en enfermedades neuromusculares, partiendo de la base de que ambas enfermedades presentan características similares. El cuestionario fue traducido al sueco y adaptado con para pacientes con distrofia reemplazando la palabra cáncer por distrofia muscular y modificando tres ítems. Esta versión tiene unos niveles de fiabilidad y

validez adecuados (Ahlström & Sjödén, 1996). Los autores añadieron otras nueve como formas de afrontamiento en distrofia muscular: 1) anticipación; 2) búsqueda de nuevos valores de vida; 3) minimización; 4) control de la vida; 5) secretismo; 6) miedo; 7) comparación social y 8) afrontamiento de que la enfermedad es hereditaria.

Con la misma población, Moorey, Fampton y Greer (2003) desarrollaron el *Cancer Coping Questionnaire*- CCQ, en una muestra de 201 pacientes con diferentes tipos de cáncer. Contiene 21 ítems distribuidos en los siguientes factores: 1) afrontamiento; 2) focalización en lo positivo; 3) diversión; 4) planificación y 5) planificación de problemas. La consistencia interna de los ítems de la escala osciló entre 0.82 y 0.87. La fiabilidad test-retest fue de 0.90.

En relación a instrumentos de medida del afrontamiento del dolor, el Cuestionario de Estrategias de Afrontamiento del Dolor (Rosenstiel y Keefe, 1983) está compuesto por 48 ítems divididas en ocho escalas con seis ítems cada una: 1) desviación de la atención; 2) reinterpretación de la sensación de dolor; 3) afrontamiento de los propios pensamientos; 4) ignorar la sensación de dolor; 5) esperanza y oración; 6) catastrofización; 7) incremento de la actividad y 8) aumento de las conductas dolorosas. Los sujetos tienen que contestar de acuerdo a una escala tipo Likert. Al finalizar el cuestionario, existe la posibilidad de contestar a dos ítems relacionados con el control sobre el dolor y la habilidad para disminuirlo. Los valores del alpha de Cronbach de este cuestionaron oscilaron entre 0.76 y 0.89.

Harland y Georgieff (2003) validaron el *Coping Strategies Questionnaire 24* en una muestra de pacientes con dolor de espalda. Dicho cuestionario cubre 4 factores principales relacionados con el afrontamiento: 1) catastrofización; 2) diversión; 3) afrontamiento cognitivo y 4) reinterpretación. La consistencia interna de esta prueba fue evaluada a través del alpha de Cronbach, obteniéndose unos valores entre 0.75 y 0.85.

2.6. Estrategias de afrontamiento centradas en la emoción

A partir de la revisión de la literatura científica, donde se describen diferentes estrategias de afrontamiento, y de los principales cuestionarios que tratan de evaluar dichas estrategias, a continuación se describen las principales formas de afrontamiento teniendo en cuenta la clasificación que las divide en estrategias centradas en el problema y centradas en la emoción utilizadas ante una situación de crisis, como en el caso de tener un miembro de la familia con una enfermedad crónica. En este primer apartado se hace referencia a las estrategias centradas en la emoción.

2.6.1. Evaluación positiva

La evaluación positiva es una estrategia de afrontamiento que incluye focalizar la atención en los aspectos positivos, beneficios o interpretaciones positivas de situaciones negativas. Dentro de esta categoría, diferentes investigadores han empleado varios términos como logro de beneficios frente a la adversidad, reinterpretación positiva o crecimiento post-traumático (Tennen & Affleck, 2002).

Esta estrategia de afrontamiento activo está enfocada a crear un nuevo significado de la situación problema, intentando salvar todo lo positivo que tenga la situación y tratando de identificar beneficios a partir de la adversidad. La persona es consciente de las consecuencias de la enfermedad y se adapta a la situación. Se da cuenta de que no va estar bien y no hace comparaciones con personas sanas. Los valores materiales se vuelven menos importantes. La atención está dirigida en los aspectos no afectados por la enfermedad, las relaciones con los otros, la experiencia con la naturaleza, en el desarrollo personal y en vivir consigo mismo. La persona aprecia lo que puede hacer y experimenta la vida con mayor intensidad (Folkman, Lazarus, Dunkel-Schetter, DeLongis, y Gruen, 1986; Carver et al., 1989; Fernández-Abascal, 1997; Folkman y Moskowitz, 2000).

En la literatura científica se han descrito predictores de la personalidad relacionados con la evaluación positiva, entre los que se destacan el optimismo y la esperanza. Los individuos que tienden a generalizar expectativas asociadas a resultados positivos o que poseen un sentido de la determinación dirigido a la consecución de metas, buscan oportunidades para transformar las situaciones amenazantes en circunstancias favorables a través de la búsqueda de beneficios o del uso de estrategias de reevaluación positiva. Gracias a ello, consiguen asegurar que los resultados positivos ocurran y que los objetivos se consigan (Snyder, Harris, Anderson, Holleran, Irving, Sigmon et al., 1991; Scheier, Carver y Bridges, 1994).

El uso de la evaluación positiva hace que la persona preste atención al evento negativo, pero también es capaz de reconocer los aspectos positivos y sus

consecuencias. Este tipo de afrontamiento se ha relacionado con la salud psicológica, con mayor nivel de bienestar y de resiliencia al estrés. Además, facilita mantener el foco en los aspectos emocionales de la situación, reinterpretando dichos aspectos, más que ignorándolos (Folkman y Mokowitz, 2000; Shiota y Levenson, 2009).

Diferentes estudios han demostrado que ante la presencia de una enfermedad como el cáncer o ante otro tipo de acontecimiento vital estresante, las personas son capaces de percibir beneficios de la experiencia. Por ejemplo, en el estudio de Sears, Stanton y Danoff-Burg (2003), se identificó al menos un beneficio fruto de la experiencia de mujeres diagnosticadas de cáncer, especialmente en relación al apoyo social y a las relaciones con los demás.

En la misma línea, Behr, Murphy y Summers (1992), tras realizar un análisis exploratorio con un de 1200 familias, identificaron los siguientes factores relacionados con la percepción positiva ante situaciones de dificultad: 1) fuente de alegría y amor; 2) contribución a la fuerza familiar; 3) estímulo para el desarrollo y crecimiento personal; 4) fuente de orgullo; 5) camino para el aprendizaje; 6) modo de entender el propósito de la vida; 7) guía para entender futuros problemas y 8) estímulo para el crecimiento profesional.

Del mismo modo, Hastings y Taunt (2002) identificaron varios temas claves sobre la naturaleza y estructura de experiencias y percepciones positivas en padres y madres con hijos con discapacidad. Los autores los resumen en los siguientes temas: 1) satisfacción en proveer cuidados al hijo/a; 2) niño como recurso de alegría; 3) sensación

de cumplimiento a la hora de hacer lo mejor por su hijo/a; 4) compartir amor con su hijo/a; 5) el niño como oportunidad para aprender y desarrollarse; 6) fortalecimiento de la familia; 7) incremento de la sensación de tener un propósito vital; 8) desarrollo de nuevas destrezas y habilidades; 9) posibilidad de ser mejor persona (más compasivo, menos egoísta, más tolerante); 10) incremento de la confianza y fuerza personal; 11) incremento de la red social; 12) incremento de la espiritualidad; 13) cambio en la perspectiva vital y 14) aprovechar al máximo cada día.

2.6.2. Desarrollo personal

Esta estrategia, vinculada en cierta manera a la anterior, permite la consideración del problema de una manera relativa de auto-estímulo y de un positivo aprendizaje de la situación, centrándose sobre todo en el desarrollo personal (Fernández-Abascal, 1997). Se considera el crecimiento relacionado con el estrés a los cambios positivos que ocurren como consecuencia de la situación estresante. Incluye cambios en la percepción sobre uno mismo, cambios en las relaciones con los otros y, por último, cambios en la filosofía vital (Calhoun & Tedeschi, 2004).

Schaefer y Moos (1992) desarrollaron un modelo para explicar las variables determinantes del desarrollo personal ligado a procesos de estrés. Estas variables incluyen: a) las características personales, como el género o rasgos personales o las características de su entorno; b) las características del evento negativo: duración, nivel de estrés, nivel de control; c) conducta de afrontamiento, incluyendo re-evaluación

positiva, aceptación y asunción de la existencia de aspectos de la situación que no pueden modificarse.

Según Park, Cohen y Murch (1996) existen una serie de predictores del desarrollo personal ligado al estrés, entre los que se encuentran la religiosidad, el apoyo social satisfactorio, la interpretación positiva, la aceptación y el número de eventos vitales positivos vividos recientemente.

2.6.3. Autocontrol

El autocontrol engloba a los esfuerzos para controlar los propios sentimientos y respuestas emocionales (Folkman et al., 1986). Hace referencia a la capacidad para superar o resistir impulsos o tentaciones, especialmente para actuar de acuerdo con ideas, valores y expectativas sociales (Baumeister, 2012). El autocontrol se considera como un recurso finito de energía que se emplea cuando hay que llevar a cabo conductas que requieren inhibir una respuesta (Baumeister, Vohs y Tie, 2007; Hagger, 2010).

Baumeister (2012) describe cuatro dominios relacionados con el autocontrol. Las personas regulan pensamientos, intentando concentrarse en unos o eliminando otros. También regulan emociones y estados de humor, como cuando intentamos sentirnos mejor. De la misma manera, las personas regulan impulsos, como en el caso de resistir tentaciones y por último, intentan regular sus acciones.

De acuerdo con Rosenbaum (2000), el autocontrol se activa cuando las personas no pueden continuar funcionando de la misma manera en la que están acostumbrados, ya sea por un cambio en el entorno, como en el caso de la aparición de una enfermedad crónica o porque actúan de manera ineficaz. La adquisición de habilidades de autocontrol cambia la percepción sobre la nueva situación, facilitando que la indefensión disminuya y surjan nuevas maneras de pensar y de actuar. Cuantos más nuevos recursos tiene la persona, mayor facilidad para experimentar sensación de control sobre la situación estresante, reduciendo las respuestas de ansiedad y sintomatología psicosomática.

El autocontrol ha sido vinculado con un buen nivel de salud psicológica y física, adecuada autoestima, conductas saludables, menores conductas de riesgo o de abuso de sustancias y con relaciones interpersonales satisfactorias. También existe una relación significativa entre el uso de estrategias de autocontrol con el menor empleo de estrategias de evitación (Tangney, Baumeister y Boone, 2004; Baumeister et al., 2007; Boals, vanDellen y Banks, 2011; Bowlin y Baer, 2012). Sin embargo, un inadecuado autocontrol se ha relacionado con problemas de impulsividad, incluyendo sobre-ingesta, abuso de drogas, alcohol o inclusión en problemas relacionados con la violencia. Además, puede estar asociado con problemas emocionales tales como ansiedad y depresión, fracaso escolar, falta de persistencia en las tareas iniciadas, así como con problemas en las relaciones sociales. Otros estudios, han vinculado el autocontrol de manera negativa con la salud psíquica y con un incremento de la sintomatología psicológica, ya que en ocasiones puede estar asociada con sentimientos de confusión, incompetencia, frustración y afectividad negativa (Penley et al, 2002).

Diferentes estudios han hallado correlación entre la falta de autocontrol y problemas de conducta en una amplia gama de áreas relacionadas con la salud como en cáncer, problemas emocionales como la ansiedad o la depresión, pesadillas, problemas de sueño, enuresis o procedimientos médicos (Hamama, Ronen y Rahav, 2008). Dichos estudios describen, por ejemplo, la relación entre el mayor autocontrol y la mayor tolerancia ante estímulos dolorosos, menores niveles de intensidad de dolor de cabeza en personas afectadas por jaquecas o menores errores de ejecución en personas que sufren mareo por movimiento (Rosenbaum, 2000; Nakano, 1995). El estudio de Hamama et al., (2008) también destaca la importancia del autocontrol a la hora de afrontar situaciones estresantes como el hecho de tener un miembro enfermos en la familia.

2.6.4. Conformismo-resignación

Este concepto refleja una tendencia a la pasividad, a la percepción de falta de control sobre las consecuencias del problema y a la aceptación de consecuencias que puedan producirse (Fernández-Abascal, 1997). Hace referencia a pensamientos de abandono y de que nada puede cambiar la situación (Brink, Persson y Karlson, 2009), así como al grado en el que los pacientes se perciben a sí mismos como indefensos para afrontar aspectos relacionados con el evento estresante o la enfermedad, como por ejemplo el tipo de tratamiento o los retos que supone el trastorno.

Diferentes estudios han observado una relación negativa entre el bienestar subjetivo y la resignación en pacientes con enfermedades como el cáncer (Osborne, Elsworth, Kissane, Burke y Hopper, 1999; Gunnarsdottir, Donovan, Serlin, Voge y Ward, 2002) o la diabetes (Luyck, Vanhalst, Seiffge-Krenke y Weets, 2010). En la misma línea, existe una asociación positiva entre este tipo de afrontamiento y el incremento en los sentimientos de indefensión, síntomas de depresión y ansiedad (Costa-Requena y Gil, 2009).

Atendiendo a los estudios relacionados con la resignación que han tenido en cuenta a familiares de personas con enfermedades, cabe destacar la investigación llevada a cabo por Hanzawa, Tanaka, Inadomi, Urata y Ohta (2008), en la que se concluye que la sobrecarga derivada de los cuidados a su hijo afectado está relacionada en gran medida con la resignación.

2.6.5. Aceptación

Estrategia que hace referencia a la aceptación de que el estresor no puede ser modificado y a la necesidad de tener que adaptarse al mismo (Carver et al., 1989). La persona acepta el diagnóstico y continúa con su vida sin una ansiedad excesiva relacionada con la enfermedad, sin buscar nueva información a menos que aparezcan síntomas nuevos (Greer y Watson, 1987). La aceptación supone un esfuerzo por detenerse en la búsqueda de una solución definitiva hacia problemas físicos, reorientando la atención hacia los aspectos positivos de la vida (McCracken y Eccleson, 2003).

En general, la aceptación refleja la presencia de cogniciones que promueven la integración de la experiencia de enfermedad dentro del estilo de vida del paciente (Karademas y Hondronikola, 2010) y que preparan a la persona para enfrentarse con las restricciones y cambios en su vida fruto de la enfermedad (Juczynski, 2001).

En cambio, un nivel bajo o la falta de aceptación de la enfermedad puede conllevar la no adherencia al tratamiento médico, el empleo de auto-tratamientos o de terapias alternativas, la demanda de tratamientos más agresivos, la negación de la utilidad de la terapia prescrita, un profundo distress psicológico o arrebatos de cólera (Zalewska, Miniszewska, Chodkiewicz y Narbutt, 2007).

La presencia de una enfermedad crónica conlleva la aceptación de una pérdida y una serie de cambios en los valores y creencias personales. Estos cambios suelen incluir la modificación de los valores sociales y espirituales, que se extienden más allá de los que están directamente relacionados con las habilidades físicas (Wright, 1983; Chao, Tsai, Livneh, Lee y Hsieh, 2010).

La aceptación de la enfermedad representa un conjunto de cogniciones relacionadas con la enfermedad, que pueden predecir la salud subjetiva. En este sentido, el incremento de la aceptación de la enfermedad y la disminución de la indefensión puede servir como base para promover el ajuste ante la enfermedad y la mejora del bienestar (Karademas y Hondronikola, 2010).

En relación a enfermedades crónicas que cursan con dolor, como en el caso de la fibromialgia, Rodero et al. (2011) destacan a partir de sus estudios la existencia de relación entre el mayor grado de aceptación del dolor y el menor nivel de dolor, síntomas, impacto de la enfermedad, ansiedad, depresión, así como un mejor nivel de salud general, vitalidad, funcionamiento social y un mayor empleo de estrategias de afrontamiento activas.

Lo mismo ocurre en pacientes con enfermedades crónicas como el estoma, daño en la médula espinal, diabetes mellitus o síndrome de Ehlers-Danlos, en las que altos niveles de aceptación de la enfermedad están asociados con un incremento de las conductas promotoras de la salud, reduciendo de esta manera el riesgo de reaparición de la enfermedad y complicaciones derivadas de ésta (Chao et al., 2010).

En niños, se ha demostrado la asociación entre la aceptación del dolor y un mejor funcionamiento físico y emocional. La aceptación de los padres también se ha asociado con un mejor ajuste en el funcionamiento infantil (McCracken y Gauntlett-Gilbert, 2011). El proceso de aceptación ante una situación estresante como el dolor, incluye responder a las experiencias relacionadas con el mismo sin realizar intentos por controlarlo o evitarlo, especialmente cuando estos intentos limitan la calidad de vida de las personas (McCracken y Eccleston, 2005).

Si tenemos en cuenta la influencia de otros factores en el empleo de estrategias de afrontamiento ligados a la aceptación, diferentes estudios han resaltado el hecho de que este mecanismo no está afectado de manera significativa por variables como el

género, la edad, la duración de la enfermedad o la gravedad de la misma (Zalewska, Miniszewska, Chodkiewicz y Narbutt, 2007; Büssing, Matthiessen y Mundle, 2008). Sin embargo, sí que parece estar influenciado por el nivel educativo, de manera que las personas con un bajo nivel educativo requieren de mayor asistencia para la consecución de un alto grado de aceptación de la enfermedad y en consecuencia de un mejor ajuste (Richardson, Adner y Nordström, 2001).

En la práctica clínica, cabe destacar la terapia de la aceptación y compromiso (Hayes, Strosahl y Wilson, 1999). Desde esta perspectiva, se defiende que los intentos rígidos para controlar o eliminar el sufrimiento son parcialmente exitosos y tienen claras desventajas, ya que intentan controlar experiencias inevitables. Este tipo de aproximación utiliza métodos que ayudan a la persona a estar abierta y enfocada en el momento presente sin intentar eliminar el distress, asumiendo que no hay necesidad de cambiar la presencia o frecuencia de pensamientos, sentimientos o sensaciones displacenteros (Gauntlett y Connell, 2012).

2.6.6. Apoyo social

El apoyo social hace referencia a la percepción que tiene una persona de sentirse cuidada, querida, estimada, valorada y formando parte de una red social. Sus funciones más frecuentes son proveer información, feedback, apoyo emocional e instrumental (Cobb, 1976; Williams, 2005). Existe abundante evidencia de que el apoyo social está relacionado con un nivel de salud física y psicológica satisfactorios, con una reducción de la mortalidad, menores niveles de estrés y de estados depresivos e incluso con menor

percepción de la intensidad de dolor (López, Esteve, Ramírez, 2008). El apoyo social y los mecanismos de afrontamiento de aproximación, así como una alta autoestima y sensación de control sobre la situación, están asociados a mejores niveles de ajuste y a menores niveles de estrés, lo que predice una mejor salud psicológica. Al contrario, el afrontamiento evitativo está asociado con un mayor distress psicológico (Baker, Owens, Stern y Willmot, 2009).

Existen cinco dimensiones dentro del concepto del apoyo social: apoyo social emocional, apoyo social relacionado con la estima, formar parte de una red social, apoyo relacionado con la evaluación de la situación y apoyo altruista (McCubbin, McCubbin, Thompson, Han, & Allen, 1997).

Este concepto puede describirse: a) en términos de integración y participación social: existencia, cantidad y frecuencia de relaciones sociales; b) como estructura de las relaciones sociales de una persona con sus características estructurales específicas y c) definido en términos del contenido funcional de las relaciones sociales en relación con el bienestar de los sujetos (Rodriguez-Marín, Pastor y López-Roig, 1993).

De esta manera, los modelos relacionados con el apoyo social que podemos encontrar en la literatura científica suelen encajar dentro de dos tipos (Decker, 2007):

a) Modelos estructurales: consideran la red social de la persona como fuente mediante la cual recibe ayuda para afrontar las demandas y conseguir los

objetivos exigidos por la situación. Se valoran variables como el número de relaciones o roles sociales o la frecuencia de los contactos.

b) Modelos funcionales: evalúan la percepción individual de los diferentes tipos y calidad de las relaciones establecidas. El apoyo social se conceptualiza como un meta-constructo multidimensional que tiene en cuenta el tipo de relación, el tamaño de la red social, el tipo y frecuencia de las conductas de apoyo, así como la calidad del apoyo.

Teniendo en cuenta la teoría de Lazarus y Folkman (1984), el apoyo social puede ejercer un efecto mediador entre el estresor y la reacción de estrés, al alterar la interpretación que el sujeto realizar sobre el primero, ya que puede reducir la importancia percibida del problema o porque el apoyo puede aportar una solución práctica ante dicho problema (Posluszny, Hyman y Baum, 1998).

En la misma línea, diferentes estudios han revelado que la percepción de apoyo social positivo tiene un efecto regulador en los niveles de ansiedad y la depresión. Se ha visto que promueve el ajuste psicosocial en enfermedades crónicas como por ejemplo la artritis reumatoide (Curtis, Groarke, Couchlan y Gsel, 2004). Por su parte, el apoyo negativo está relacionado con mayores niveles de ansiedad y depresión (Ray, 1992).

Además, puede ser un precursor del crecimiento personal, ya que influye en las conductas de afrontamiento y fomenta la adaptación exitosa ante las situaciones vitales (Schaefer y Moos (1998), especialmente en las primeras fases de la situación de crisis

(Schreurs y Ridder, 1997; Prati y Pietrantoni, 2009). En el lado opuesto, la falta de apoyo social puede verse como un estresor en sí mismo y está asociada con problemas de salud.

Para entender el efecto del apoyo social en el distress se han planteado dos hipótesis principales (Cohen y Wills, 1985; Venters y Wallander, 2001; Underwood, 2012):

a) Hipótesis de la amortiguación: el apoyo social está relacionado con el bienestar principalmente para personas bajo los efectos del estrés. Según este modelo, también denominado como modelo de mediación, el apoyo tiene una función mediadora a través del efecto directo en la autopercepción y en otros aspectos cognitivos o mediante cambios directos en conductas dirigidas a la resolución de problemas. El apoyo social reduciría el impacto psicológico de los acontecimientos estresantes reduciendo a su vez la posibilidad de que los niveles de estrés puedan contribuir a la aparición o agravamiento de la enfermedad. La idea clave es que en ausencia de estrés, el apoyo social no está relacionado con la salud mental. Este teoría se sustenta en cinco hipótesis principales: 1) los eventos son estresantes en la medida en la que las personas lo perciben como amenaza y se ven a sí mismas con falta de respuestas adecuadas; 2) los acontecimientos incrementan el riesgo de la presencia de una escasa salud mental dependiendo del afrontamiento de la persona; 3) el apoyo social es un recurso relativamente estable que amortigua el estrés, principalmente porque

influye en la interpretación y en el afrontamiento; 4) el apoyo social incluye lo que amigos y familiares expresan y realizan en relación a los acontecimientos estresantes. Este apoyo está fundamentado sobre todo por la experiencia previa de apoyo social efectivo; 5) el apoyo social es efectivo a la hora de amortiguar el estrés cuando el apoyo da respuesta a las demandas provenientes del hecho estresor.

b) Hipótesis de los efectos directos: esta teoría subraya el hecho de que el apoyo social tiene un efecto beneficioso, siendo irrelevante que la persona esté o no bajo condiciones de estrés. El apoyo social influiría directamente sobre la enfermedad física, contribuyendo al desarrollo de menores niveles de comorbilidad y a una mejor rehabilitación. La teoría de la regulación relacional (Lakey y Orehek, 2011) defiende la hipótesis de que el efecto directo en el estrés ocurre cuando la persona regula sus afectos, pensamientos y acciones a través de conversaciones afectivas ordinarias y actividades compartidas, más que a través de conversaciones sobre cómo afrontar el estrés.

El apoyo social representa uno de los recursos de afrontamiento más importantes a valorar en la enfermedad crónica. Los recursos sociales representan la red social y sus sistemas de apoyo social, de los que puede obtenerse información, asistencia tangible y apoyo emocional. Una variable clave en el apoyo social es la percepción de apoyo por parte del sujeto. Esta variable subjetiva hace referencia al grado en que el sujeto percibe la existencia de relaciones proveedoras de apoyo suficientes y adecuadas para ayudarle

a regular sus respuestas emocionales y reforzar sus iniciativas de afrontamiento ante el problema. En cambio, cuando lo que se transmite son sentimientos de impotencia que bajen la autoestima o cuando se muestra como única alternativa el aspecto negativo de su situación, los niveles de estrés probablemente aumentarán, así como sus dificultades para llevar a cabo el proceso de afrontamiento. En general, existirá una relación beneficiosa entre apoyo social y afrontamiento en la medida en que las fuentes de apoyo consigan aumentar la autoestima del sujeto (Rodriguez-Marín, Pastor y López-Roig, 1993).

El éxito del apoyo social está relacionado con diferentes aspectos, como por ejemplo, que la ansiedad del que da el apoyo sea mínima. También es importante que la situación entre el que da y el que recibe el apoyo sean similares, al incrementar la percepción de comprensión empática (Folkman, 1992). El apoyo social es más efectivo cuando existe una relación entre las necesidades surgidas por el evento estresante y cuando la función de apoyo es percibida como accesible (Cohen y Syme, 1985). Cada vez existen más evidencias de que las atribuciones que hacen las personas sobre las conductas de apoyo de los demás influyen significativamente en la efectividad de dichas conductas como moderadoras de los efectos negativos de los eventos vitales negativos. De esta manera, la percepción e interpretación que se haga sobre esa conducta de apoyo parece ser un factor crucial (Wethington y Kessler, 1986).

En el caso de pacientes mastectomizadas, un buen apoyo social percibido puede predecir un mejor ajuste postoperatorio, actuando como protectora contra el estrés (Northouse, 1988). Se han observado resultados similares en pacientes con artritis

reumatoide (Affleck, Pfeiffer, Tennen y Fifeld, 1988) o con síndrome de fatiga crónica (Ray, 1992), que han confirmado que a mayor satisfacción con el apoyo social, mejor ajuste psicosocial.

En relación a la investigación sobre estrategias de afrontamiento de padres y madres con un niño con discapacidad, los estudios existentes subrayan que el apoyo social es una de las principales variables que influyen en el bienestar parental. Los hallazgos también indican que las redes de apoyo median entre el grado de proteccionismo hacia sus hijos, así como con la percepción de la dificultades relacionadas con la conducta de sus hijos. El grado de apoyo existente en parejas y amigos está asociado con los niveles de satisfacción en relación al funcionamiento familiar (Snowden, Cameron y Dunham, 1994; Armstrong, Birnie-Lecovitch y Ungarm 2005).

Resultados parecidos se han encontrado en relación a la asociación positiva entre el apoyo social en momentos de crisis y la consiguiente satisfacción con la vida en las familias con hijos con discapacidad física severa (Sloper y Turner, 1993), así como con una mayor probabilidad de describir un mayor nivel de afrontamiento. Tanto el apoyo emocional como el instrumental pueden ser recursos críticos para la consecución de efectos beneficiosos. El apoyo social percibido es un factor que influye en la resiliencia de familias que tienen un niño con enfermedad crónica (Ran y McCubbin, 2002).

La percepción de apoyo dentro de los miembros de la familia representa uno de los principales recursos tanto para el paciente como para los demás miembros. Las

interacciones sociales negativas o los conflictos entre los miembros de una familia pueden suponer una causa importante de distress. Desde esta perspectiva, si un miembro de una familia vulnerable es diagnosticado de una enfermedad crónica, la habilidad de sus componentes para darse apoyo puede estar debilitada, afectando de manera negativa tanto a la recuperación y adaptación de la persona afectada, como a la comunicación intrafamiliar (Ell, 1996).

Es interesante señalar que el padecimiento de una enfermedad crónica también puede deteriorar el apoyo social debido a que la propia enfermedad puede provocar reacciones conflictivas entre las personas significativas del enfermo. Por un lado pueden darse sentimientos de miedo y aversión a la enfermedad, sintomatología y consecuencias y por el otro aparecer la necesidad de experimentar sentimientos optimistas y alegres. La ambivalencia que estos sentimientos generan puede provocar una evitación física del enfermo o de la comunicación sobre la enfermedad y una incongruencia en las conductas (Rodriguez-Marín, Pastor y López-Roig, 1993).

2.6.7. Búsqueda apoyo social emocional

Búsqueda de apoyo y comprensión en los demás, para la situación emocional en la que se encuentra. El apoyo emocional es a menudo la fuente principal de apoyo cuando se produce una situación de crisis aguda, como por ejemplo en el caso de enfermedades coronarias, mientras que el apoyo informativo es apreciado pero de manera menos evidente (Olsson, 1997).

2.6.8. Negación

La negación hace referencia al rechazo de la existencia del estresor o al intento de actuar como si el estresor no fuera real (Aldebot y Weisman, 2009). Wheeler y Lord (1999) ofrecen dos definiciones de negación: a) una respuesta de afrontamiento dinámica empleada como forma de autoengaño para proteger a la persona frente a las amenazas y b) un mecanismo de defensa, intra-psíquico e inconsciente que alivia los conflictos emocionales y la ansiedad del individuo.

La negación ha sido descrita desde un amplio rango de perspectivas (Livneh, 2009) como un mecanismo psicológico de defensa (Freud, 1961), como un mecanismo de afrontamiento (Lazarus y Folkman, 1984), como distorsión de la realidad, como una indicación de daño neurológico o anosognosia (Vandereycken, 2005). También se ha considerado como un estado o fase de adaptación psicosocial que sigue a un estado de enfermedad crónica o como un conjunto de procesos afectivos y cognitivos que buscan calmar los estímulos externos e internos (Livneh, 2009).

Es un proceso mediante el cual la persona se defiende a sí misma contra el dolor o la información amenazante (Siemerink, Jaspers, Plukker, Mulder y Hospers, 2011). Antonak, Livneh y Antonak, (1993) lo definen como un mecanismo inconsciente de defensa que se moviliza contra los daños derivados de la situación de la persona, así como del potencial pronóstico e implicaciones.

La negación puede referirse, por un lado, a la ausencia de aceptación de los hechos (existencia de enfermedad) y, por el otro, a la negación de las implicaciones derivadas de la enfermedad (Amayra, 2000; Aldebot y Weisman, 2009).

Breznitz (1983), por su parte, distingue hasta siete formas de negación: negación de la información, de la amenaza de la información, de la implicación personal, de la urgencia, de la responsabilidad, de los propios sentimientos o de la relevancia de los sentimientos. La negación implica ausencia de aceptación del problema y su evitación por distorsión o desfiguración del mismo en el momento de su valoración.

En relación a la negación en situación de enfermedad crónica, estudios recientes (Helicobacter Cancer Collaborative Group, 2001) destacan cuatro tipos de negación en pacientes con cáncer: negación del diagnóstico, negación del impacto, negación del afecto y escape conductual. Por su parte (Livneh, 2009) describen cinco tipos de manifestaciones asociadas a la negación: a) negación completa: abarca cualquier signo de enfermedad crónica o discapacidad, b) negación de limitaciones significativas asociadas a la enfermedad; c) minimización de la enfermedad atribuyendo las dificultades a otras causas; d) proyección de la enfermedad a la falta de percepción de los demás y, por último e) reconocimiento de la existencia de enfermedad en el pasado pero rechazo de su existencia en el presente.

En general, los tipos de negación relacionados con la presencia de enfermedad crónica que más comúnmente han sido descritos en la literatura han sido los siguientes: negación de los hechos, negación de las implicaciones futuras, negación de las

implicaciones emocionales, negación del significado de la información recibida y negación de los pensamientos relacionados con la enfermedad (Livneh, 2009).

Es por ello que la negación puede ser empleada por las personas afectadas por una enfermedad crónica, en el sentido de que pueden cumplir con el tratamiento médico o pueden aceptar ciertos síntomas, pero pueden no aceptar el diagnóstico o que tienen una enfermedad (Aldebot y Weisman, 2009).

Livneh (2009) destaca que la negación puede tener diferentes funciones: aliviar, minimizar o evitar el reconocimiento de una realidad dolorosa, reducir el efecto de la reacción emocional, combatir sentimientos de indefensión y desamparo y/o preservar la autoestima y la imagen positiva.

Dependiendo de la situación puede no ser adaptativa ya que puede conllevar un retraso en el tratamiento, un manejo inadecuado de la enfermedad, altos niveles de estrés o depresión (Telford, Kralik & Koch, 2006), sobre todo si esta estrategia se utiliza de manera continuada durante un periodo prolongado de tiempo (Livneh, Lott y Antonak, 2004). Por otra parte, puede ser útil de cara a la adaptación si permiten al individuo mantener su equilibrio emocional para llevar a cabo estrategias de afrontamiento centrado en el problema (Cooke, Myers y Derakshan, 2003), especialmente en las primeras fases siguientes al diagnóstico (Livneh et al., 2009). Permite a la persona tener un tiempo para prepararse para aceptar y reconocer la situación de manera gradual y manejable (Siemerink et al., 2011), así como mantener la esperanza y el optimismo (Kortte, Weneger y Chwalisz, 2003). De otro modo, la

conciencia del estresor puede conllevar efectos negativos en algunos casos ya que puede incrementar la desmoralización, sentimientos depresivos o intentos de suicidio. Estos efectos pueden amortiguarse por el efecto de recursos de la persona como el tener acceso a una terapia o a una adecuada red social de apoyo (Lewis, 2004).

A modo de ejemplo, en el caso de pacientes con una enfermedad mental crónica como la esquizofrenia se ha observado que la utilización de estilos de afrontamiento relacionados con la negación puede exacerbar los síntomas y aumentar la tasa de recaídas. Los pacientes que no creen que están enfermos están menos motivados para aprender más sobre su enfermedad y, por tanto, para cuidarse, actuar para lograr una reducción de los síntomas, así como para educar e informar al resto de sus familiares y amigos (Meyer, 2001). La negación hace referencia al rechazo de la existencia del estresor o al intento de actuar como si el estresor no fuera real (Aldebot y Weisman, 2009). Wheeler y Lord (1999) ofrecen dos definiciones de negación: a) una respuesta de afrontamiento dinámica empleada como forma de autoengaño para proteger a la persona frente a las amenazas y b) un mecanismo de defensa, intra-psíquico e inconsciente que alivia los conflictos emocionales y la ansiedad del individuo.

2.6.9. Evitación

El afrontamiento evitativo es un proceso que incluye evaluaciones excesivamente negativas sobre pensamientos no deseados, sentimientos o sensaciones, renuncia a experimentar estas experiencias privadas y esfuerzos deliberados para controlarlos y escapar de ellos (Bach, Morán y Hayes, 2008). Hace referencia a la

estrategia que desvía la atención de la fuente de estrés o de la respuesta al estresor (Suls y Fletcher, 1985). Incluye esfuerzos cognitivos y conductuales orientados a la minimización y otras maneras de evitar afrontar directamente las demandas del estresor.

Diferentes estudios, tanto en muestra clínica como no clínica, han concluido que la evitación se relaciona con deterioro en la salud física y psicológica, así como con la aparición de sintomatología relacionada con la ansiedad y la depresión (Penley, Tomaka y Wiebe, 2002; Costa y Pinto-Gouveia, 2011; Elliot, Thrash y Murayama, 2011), incluso a largo plazo, prediciendo la aparición de estresores crónicos y agudos (Holahan, Moos, Holahan, Brennan y Schutte, 2005). De esta manera, las estrategias evitativas parece que actúan como generadoras de un amplio rango de estresores, mostrándose inefectivas (Pino, Frías, Palomino y Pancorbo, 2011). Por ejemplo, la evitación cognitiva puede permitir la generación de estresores incipientes como problemas financieros o de salud (Holahan et al., 2005).

Los procesos de evitación pueden contribuir a la depresión ya que se limitan las experiencias positivas y las fuentes de refuerzo positivo, a la vez que se incrementa la probabilidad de experiencias y consecuencias negativas. Además, puede contribuir al procesamiento negativo de la información, incrementado la vulnerabilidad para la aparición y recurrencia de episodios depresivos (Trew, 2011).

La evitación de objetivos focaliza la atención en las posibilidades negativas, generando preocupación, amenaza, distracción, presión, rumiación, ocupación por uno

mismo y reducción de la flexibilidad cognitiva, interfiriendo en la habilidad para funcionar de manera eficiente y eficaz (Elliot, Thrash y Murayama, 2011).

En el caso de cuidadores con familiares con enfermedades crónicas, diferentes estudios han observado la existencia de una relación positiva entre la carga subjetiva que implica la enfermedad con el uso de estrategias de evitación (Pino et al., 2011).

Existe evidencia de que este tipo de estrategia puede ser adaptativa, particularmente cuando el evento estresor es de corta duración y es probable que no conlleve consecuencias serias (Suls y Fletcher, 1985). Los estudios que han asociado de manera positiva el estrés con el uso de la estrategia de afrontamiento evitativo en población sana (Felsten, 1998; Bonano, Keltner, Holen y Horowitz, 1995) y con enfermedades como el SIDA (Brinks, Feaster y Mitrani, 2010) ponen en evidencia que esta estrategia puede ser adaptativa y útil cuando es aplicada de manera flexible dependiendo de las circunstancias y demandas contextuales. Esto significa que el uso rígido e infleible de algunos estilos de afrontamiento como la evitación, es lo que conlleva un mayor desajuste, no de las estrategias en sí mismas (Kashdan, Barrios, Forsyth y Sterger, 2006).

Como Lazarus sugirió (1983), las estrategias de tipo evitativo pueden tener un efecto positivo en las etapas iniciales del afrontamiento, cuando las personas poseen pocos recursos instrumentales o centrados en el problema. Los efectos beneficiosos de la evitación parecen más evidentes durante las dos primeras semanas desde que

comenzó el estresor. Tras ese tiempo, las estrategias que no incluyen la evitación están asociadas a adaptación positiva (Suls y Fletcher, 1985).

En la misma línea, Horowitz (1983), afirma que ante una información traumática inicial la reacción de negación puede darse debido a la discrepancia con su modelo interno de uno mismo o de las circunstancias vitales. Cuando dichas experiencias estresantes o sus secuelas persisten, la información puede ser gradualmente aceptada.

En cuanto a la variable género, Holahan et al. (2005) concluyeron que en las mujeres, la estrategia de evitación puede estar relacionada con síntomas futuros de depresión a nivel interno y externo a través de los estresores vitales. La ruta interna entre este tipo de afrontamiento y los síntomas de depresión futuros en las mujeres puede reflejar la presencia de rumiación, más común en mujeres que en hombres y relacionada con mayor y más persistente sintomatología depresiva (Nolen-Hoeksema, 2006). Esta relación parece darse en mayor medida en el caso de la evitación cognitiva y no tanto en la evitación de tipo conductual (Blalock y Joiner, 2000).

Algunos autores explican estas diferencias desde la Teoría de la Socialización de Pearlin y Schooler, (1978), la cual defiende que la mayor vulnerabilidad a los acontecimientos vitales estresantes de las mujeres puede ser resultado del proceso de aprendizaje social a través del que han aprendido a manejar estrategias de tipo pasivo y centradas en la emoción. En cambio, los hombres han sido socialmente motivados para aplicar tipos de afrontamiento de tipo activo y basado en el problema.

De esta manera, hay que tener en cuenta la variabilidad en la relación entre afrontamiento evitativo y las consecuencias físicas y psicológicas según los contextos y la dimensión temporal (Gonzales, Tein, Sandler y Friedman, 2001).

Moos y Schaefer (1993) proponen diferentes tipos de evitación:

2.6.10. Evitación emocional

Estrategia emocional en la cual se evitan expresar las emociones, dada la carga emocional o la desaprobación social (Moos y Schaefer, 1993).

2.6.11. Evitación comportamental

Estrategia comportamental en la que llevan a cabo actividades o acciones que contribuyan a tolerar el problema o eliminar o neutralizar las emociones generadas por las mismas. Búsqueda de recompensas alternativas, expresión de emociones y conductas conducentes a la reducción de la tensión (Moos y Schaefer, 1993).

2.6.12. Evitación cognitiva

Estrategia cognitiva en la que se busca eliminar o neutralizar los pensamientos valorados como negativos o perturbadores, a través de la distracción o negación. Esta táctica cognitiva se utiliza para evitar pensamientos relacionados con los peligros de una situación de alto riesgo (Moos, 1993; Moos y Holahan, 2003).

Otras subcategorías que podemos considerar dentro de la categoría del afrontamiento evitativo (Lazarus y Folkman, 1984) son la respuesta paliativa y el pensamiento desiderativo. La respuesta paliativa consiste en incluir en su afrontamiento elementos que buscan la evitación de la situación estresante, intenta sentirse mejor fumando, bebiendo o comiendo (Fernández-Abascal, 1997).

Respecto al pensamiento desiderativo, a pesar de que es un aspecto de gran importancia en la teoría del afrontamiento, ha recibido escasa atención en la literatura científica (Krizan y Windschitl, 2009). Este concepto hace referencia a la interacción entre los deseos y preferencias de una persona con los resultados y con las expectativas y predicciones del resultado (Liegey, 1999). Es decir, al deseo de que el estresor no exista o imaginar que el estresor desaparecerá por sí mismo, fantaseando o esperando la ocurrencia de un milagro (Tamres, Janicki y Helgeson, 2002).

Siguiendo el modelo que ofrece el Inventario de Estrategias de Afrontamiento de Lazarus y Folkman (1984) se pueden encontrar diferentes factores que lo describen al pensamiento desiderativo: 1) esperanza de que ocurra un milagro; 2) deseos de que se puede cambiar lo que ha pasado o los sentimientos; 3) imaginarse y soñar despierto con un sitio o tiempo mejor y 4) fantasear o desear que las situaciones se podían haber acabado o que podrían desaparecer.

Las personas suelen soñar o fantasear sobre diferentes resultados diferentes que pueden resultar de las diferentes situaciones. De alguna manera, estos deseos y esperanzas se inmiscuyen en la realidad del sujeto.

Para bien o para mal, las personas pueden mostrar un optimismo irreal sobre sí mismos y de la perspectiva de futuro. En el sentido positivo, las personas muy optimistas mantienen una sensación de control y un nivel elevado de bienestar psicológico. En el lado negativo, un exceso de optimismo puede conllevar a la generación de demasiada confianza y a la participación en conductas peligrosas y de riesgo (Vosgerau, 2010).

La literatura científica describe el pensamiento desiderativo como el exceso de optimismo sobre los eventos del futuro que son difíciles de controlar por parte de la persona o que no dependen de sus acciones. Este concepto puede expresar, por ejemplo, deseos acerca de la no ocurrencia del problema y/o de sus consecuencias (Vosgeru, 2010) y la percepción de la probabilidad de la ocurrencia de un evento positivo en un grado elevado y de la ocurrencia de un evento negativos en un grado bajo. Se diferencia del optimismo en que este último es una expectativa generalizada basada en una historia de experiencias exitosas (Sigall, 1997).

En el marco de la teoría del afrontamiento del estrés, el pensamiento desiderativo se emplea para afrontar situaciones estresantes, permitiendo a la persona escapar temporalmente de la situación imaginando escenarios futuros que le llevan a los resultados deseados (Liegey, 1999). Sin embargo, según Lazarus (1993) el pensamiento

desiderativo es la única estrategia de afrontamiento que nunca ha sido asociada con resultados positivos. Se ha asociado a estrategias pasivas de afrontamiento y está considerada alejada de estrategias de afrontamiento centradas en el problema tales como la evitación activa, la cual requiere que el sujeto tome un rol activo para hacer frente al problema. De hecho, cuando las personas son evaluadas acerca de la eficacia del uso de esta estrategia, suelen comunicar que es una de las menos efectivas para hacer frente al estrés (Berzonsky, 1992).

El incremento del estrés se ha asociado con un mayor uso de esta estrategia tras la vivencia de una variedad de eventos vitales y enfermedades crónicas que pueden suponer una amenaza para la vida, así como en situaciones que suponen ambigüedad, falta de control, amenaza o falta de apoyo social. El pensamiento desiderativo parece representar un importante predictor del estrés. El empleo de esta forma de afrontamiento puede permanecer activo mientras la situación se esté dando y esté sin resolver. Una vez que la situación se resuelve, su uso tiende a disminuir (Liegey, 1999).

La revisión realizada por Liegey (1999) sobre el pensamiento desiderativo generó una serie de conclusiones entre las que se destaca el hecho de que ciertos factores socioculturales están relacionados con el mayor empleo de esta forma de afrontar, entre las que se encuentran el ser mujer, joven, tener un nivel educativo bajo o tener rasgos neuróticos de personalidad o pesimismo.

Otra revisión llevada a cabo en 2002 por Penley et al., (2002) analizó los resultados de 12 estudios acerca del impacto del pensamiento desiderativo en la salud.

En este sentido, las diferentes investigaciones apuntan a que este tipo de pensamiento está asociado de manera negativa con la salud psíquica y el bienestar psicológico, resultado que se repite en diferentes tipos de estresores. Una de las explicaciones para estos resultados es que el pensamiento desiderativo está asociado, con frecuencia, a emociones como la preocupación y la ansiedad.

2.6.13. Autoculpación

La autoculpabilidad hace que el sujeto valore su responsabilidad en el inicio u origen del problema. Existen teorías contrapuestas sobre los efectos de las atribuciones relacionados con la autoculpabilidad en el ajuste psicológico. Por un lado, algunos investigadores defienden que las atribuciones de autoculpabilidad correlacionan con un inadecuado ajuste psicológico a medio y largo plazo (Abramson, Seligman y Teasdale, 1978; Schneider, 2000; Bennett, Compas, Beckjord y Glinder, 2005), incluyendo síntomas de depresión.

Sin embargo, otros investigadores sugieren que puede tener un efecto positivo en dicho ajuste psicológico y un carácter adaptativo. De acuerdo con la hipótesis atribucional defensiva, la autoculpabilidad puede conllevar una percepción mayor del grado de severidad percibida de la enfermedad y con la creencia de poder prevenir una circunstancia similar en el futuro. La autoculpabilidad está asociada con la creencia de poder ejercer un grado de control ante la situación (Schneider, 2000; Tennen, Affleck y Gershman, 1986).

Janoff-Bulman, (1979) intentó clarificar esta discrepancia distinguiendo entre dos clases de autoculpación: disposicional y conductual. El primer concepto hace referencia a la disposición a la culpabilidad asociada al carácter de la persona y tiene consecuencias poco adaptativas, ya que el foco no puede cambiarse ni controlarse. Por otra parte, la autoculpabilidad conductual está asociada con consecuencias positivas ya que está asociada a conductas específicas del individuo, posibilitando el mantenimiento de su autoestima, asunciones sobre el mundo y percepción de control. La autoculpabilidad conductual puede ayudar a las personas a percibir el futuro como controlable.

Aunque algunos estudios han mostrado beneficios relacionados con la culpabilidad conductual (Timko y Janoff-Bulman, 1985), la mayoría de las evidencias sugieren que tanto la autoculpabilidad conductual como la disposicional tienen un efecto negativo en la adaptación a una enfermedad crónica, como se ha observado en el caso del cáncer (Glinder y Compas, 1999; Bennett, Compas, Beckjord y Glinder, 2005). Janoff-Bulman (1992) propone que la autoculpabilidad conductual puede tener consecuencias adaptativas en ausencia de autoculpabilidad disposicional, pero los beneficios de culpar a las propias conductas se pueden perder si se hacen atribuciones basadas en el carácter o disposiciones de la persona.

El concepto de autoculpabilidad está íntimamente ligado con la teoría atribucional de la motivación (Peterson y Seligman, 1987; Weiner, 1986), la cual engloba tres conceptos fundamentales de la Psicología: locus de causalidad, estabilidad y control. Según esta teoría, cuando una persona atribuye las causas de su enfermedad a

factores internos, inestables y controlables (responsabilidad), tiende a utilizar formas de afrontamiento más adaptativas logrando un mejor ajuste. Por otra parte, la atribución causal de un estresor a factores internos, estables e incontrolables (autoculpabilidad) puede conllevar el uso de estrategias de evitación y en consecuencia alcanzar niveles de ajuste más bajos.

La autoculpabilidad se ha diferenciado de la responsabilidad en la medida en que la primera hace referencia, en alguna medida, a un grado de intencionalidad con respecto a las consecuencias negativas asociadas al distress psicológico. Por su parte, la aceptación de responsabilidad está relacionada con percepción de control y con un mejor ajuste (Roesch y Weiner, 2001).

Las atribuciones relacionadas con la autoculpabilidad están vinculadas a un incremento de estrategias de evitación. Es decir, las personas que atribuyen la causa de la culpa de su estado de salud a sí mismo y no a su conducta, muestran un mayor uso de estrategias de afrontamiento evitativas, menor aceptación de sus limitaciones y dificultades. A su vez, el afrontamiento de tipo evitativo está relacionado con la aparición de emociones y cambios de tono negativo. En cambio, los pensamientos vinculados a la responsabilidad por la propia salud están relacionados con una disminución de estrategias de afrontamiento de tipo evitativo, mayor aceptación de las limitaciones y de las dificultades propias de la enfermedad y por lo tanto, con un mejor ajuste ante su situación (Voth y Sirois, 2009; Schroevers, Kraaij y Garnefski, 2011).

A la hora de valorar los procesos de culpabilidad en personas afectadas por enfermedad neuromuscular y sus familiares, hay que tener en cuenta el fuerte componente genético existente. A priori, se puede concluir que el componente biológico de las enfermedades neuromusculares, puede facilitar que los padres y madres no se sientan culpables con respecto a la enfermedad de sus hijos. Sin embargo, la circunstancia de que la enfermedad tenga un patrón hereditario ligado al cromosoma X, contribuye a que surjan sentimiento de autoculpabilidad, asociado a su vez de manera recíproca con mayores niveles de distress, depresión y carga percibida (Moses, 2010). Según este autor, este hecho contrasta con la teoría atribucional de Weiner que predice que la causa genética de una enfermedad puede aliviar los sentimientos de autoculpabilidad atendiendo a causas externas e incontrolables.

2.6.14. Culpación de otros

La atribución causal interna provoca sentimientos de culpabilidad e incrementa el riesgo de depresión, mientras que la atribución externa de resultados negativos tiene un efecto protector en la autoestima (Tennen y Affleck, 1990). La culpación de otros hace que el sujeto atribuye a otras personas la causa de un problema, de sus consecuencias o de un estado interpersonal o psicológico negativo. Su contenido es evitativo por cuanto culpar a otros supone un alejamiento del estresor (Besharat, Eisler, y Dare, 2001)

Flett, Blankstein y Holloway (1990) observaron que las personas deprimidas tienen más probabilidad de culparse tanto a sí mismos como a otros de forma

simultánea frente a eventos adversos. Esta tendencia a atribuir consecuencias a múltiples causas es definida como complejidad atribucional. Las personas deprimidas, al percibir falta de control sobre el entorno, llevan a cabo actuaciones dirigidas a que su mundo sea más predecible y comprensible. Para lograrlo, prestan mayor atención a todas las fuentes atribucionales posibles.

2.6.15. Religiosidad

El afrontamiento religioso incluye a aquellas conductas aproximativas al problema por medio de la religión, a través de una fuerza superior (Carver et al., 1989). La religiosidad se ha asociado a lo largo en la literatura científica, con estados de bienestar psicológico, menores tasas de sintomatología depresiva e incluso con mayor esperanza de vida (McCullough y Willoghby, 2009).

Kenneth Pargament (1997), uno de los autores más destacados en el estudio del afrontamiento religioso postuló que durante la presencia de eventos vitales estresantes, las creencias religiosas pueden convertirse en formas específicas de afrontamiento. Las personas tienen más probabilidad de usar atribuciones y afrontamiento religioso cuando tienen que hacer frente a una situación extrema e incontrolable (Miner y McKnight, 1999).

La investigación ha revelado que las personas suelen emplear tres tipos de orientación cuando utilizan la religión para tener un cierto grado de control sobre las situaciones estresantes, tal y como se describe a continuación. El primer estilo se define

como dirigido hacia sí mismo. La persona busca controlar la situación a través de la iniciativa propia más que con la ayuda de la religión. El segundo estilo diferido en el que el control de la situación se deja en manos de Dios. Por último, el estilo colaborativo hace referencia al hecho de que uno mismo busca el control de la situación a través de la colaboración de Dios (Bänzinger, Van Uden y Janssen, 2008).

Se han observado mecanismos psicológicos, sociales, conductuales y fisiológicos que, a través de la religión, pueden tener un impacto en la salud física y en la velocidad en la recuperación de una enfermedad (Koening, Larson y Larson, 2001).

La conducta religiosa está vinculada a la integración en una comunidad o una red social. Además, facilita un sistema de creencias y una perspectiva que permite a las personas afrontar de forma diferente las crisis en general y la muerte en particular. A su vez, los esquemas religiosos pueden incorporar creencias acerca de la muerte, que la hacen más familiar y menos amenazadora (McIntosh, Cohen y Wortman, 1993). De hecho, en algunos estudios se ha observado que a mayor participación religiosa menores niveles de depresión y mayor afecto positivo y optimismo (Sanders, 1980).

Diversos autores subrayan el valor adaptativo de la religión, ya que facilita que las personas religiosas tengan un sistema de significado que les ayuda a entender el mundo, ayudándoles a predecir y controlar los eventos y a mantener la autoestima (Spilka, Hood y Gorsuch, 1985). Por su parte, Newman y Pargament (1990) han descrito varias variables psicológicas que median entre la religión y la salud, entre las que se destacan la sensación de esperanza, la creación de redes sociales y sentimiento de

inclusión en una comunidad, la liberación emocional, la sensación de confort, el optimismo, el control de los impulsos, la cercanía a Dios y la ayuda para solucionar problemas (Hill y Pargament, 2008). Además, en relación con los modelos sobre resolución de problemas, la religión puede afectar a los procesos de toma de decisiones en la medida en la que provee un marco desde el que ver la realidad. Aporta alternativas que guían la conducta y promueve la implementación de un plan de acción en línea con la ideología religiosa (Pargament et al., 1988), incrementando la sensación de auto-control (McCullough y Willoghby, 2009).

Según Pargament y Mahoney (2002), desde el punto de vista de la religión, muchos aspectos de la vida pueden ser percibidos como sagrados, incluyendo la salud física y psicológica, lo cual proporciona una importante fuente de fuerza, significado y afrontamiento. La religión y la espiritualidad aportan a las personas una sensación de tener un destino y un propósito incluso en los momentos más difíciles de la vida (Baumeister, 1991), así como caminos viables para alcanzar dichos propósitos, como por ejemplo: apoyo espiritual, meditación, interpretación religiosa o ritos de paso). Dichos métodos se han asociado a una mejor salud mental y física, incluyendo mejor autoestima, relaciones familiares y sensación de bienestar (Pargament, 1997).

Las personas que tienen que afrontar una situación difícil como la muerte de un hijo/a y que emplea atribuciones causales relacionadas con la religión, pueden dar diferentes explicaciones para entender la situación, atribuyéndola a un Dios castigador, explicando la situación como respondiendo a un propósito mayor o entendiendo a Dios como recompensador y protector (Cook y Wimberly, 1983).

Las atribuciones causales dirigidas a la voluntad de Dios, al amor de Dios y a la ira de Dios parecen ser mayores en situaciones no-contingentes/injustas, con resultados positivos y en situaciones con consecuencias negativas, respectivamente. Las personas buscan ayuda en Dios para afrontar situaciones como fuente de apoyo en situaciones estresantes más que como una guía moral o como antídoto ante la injusticia (Pargament y Hahn, 1986).

2.6.16. Aceptación de la responsabilidad

La aceptación de la responsabilidad frente a una crisis supone reconocer el propio rol en el problema, junto con el compromiso de intentar que las cosas vayan a mejorar (Folkman et al., 1986). En relación a su efecto en la salud, Penley et al., (2002), tras llevar a cabo un meta-análisis de 23 estudios, concluyeron que el empleo la aceptación de la responsabilidad está asociado de manera negativa con la salud psíquica y con un incremento del distress psicológico y afectividad negativa. Los autores subrayan que este resultado puede estar mediatizado por el hecho de que los ítems que evalúan esta estrategia, a través de diferentes escalas, tienen una connotación de culpabilidad que en ocasiones se asocia a sentimientos de enfado, escasa autoestima y reducción de la auto-confianza.

2.6.17. Espera

Estrategia que busca esperar que la situación se resuelva por sí sola con el pasar del tiempo. Esperar supone permanecer inactivo, a la expectativa, retrasando los

sentimientos de esperanza de un cambio favorable. También supone estar preparado o disponible para actuar (Irvin, 2001).

Hay que tener en cuenta dos factores importantes, los antecedentes y las consecuencias de la espera. Los antecedentes incluyen tanto la percepción individual de los cambios potenciales en la salud, por ejemplo el miedo, como la expectativa de resultados beneficiosos. Pueden caracterizarse por la inactividad o por sentimientos de suspensión (Jonsen, Athlin y Suhr, 2000). Por otro lado, las consecuencias de la espera pueden incluir un incremento de la ansiedad, de la incertidumbre, de falta de control, vulnerabilidad, debilitamiento y en general, una tendencia a no conseguir una adaptación normalizada y un uso adaptativo de mecanismos de afrontamiento (Irvin, 2001).

Esperar hasta que se dé un evento estresante relacionado con la salud, como puede ser la confirmación de un diagnóstico o una operación importante, puede estar asociado con sentimientos de pérdida de control, así como con la falta de otras opciones o alternativas (Gupton, Heaman y Ashcroft, 1997). La espera de un diagnóstico de una enfermedad es una situación displacentera y supone un estresor, asociado a estados de ansiedad, depresión, enfado, frustración, fatiga, dificultades para concentrarse, comer o dormir (Clarke-Steggen, 1993; Colbert, 1994; Irvin, 2001; Chou, Chen, Chen, Chen y Mu, 2009). Incluso puede afectar al funcionamiento social, deteriorándolo (Underwood, Firmin y Jehr, 1993).

2.6.18. Refrenar el afrontamiento

Esta estrategia está íntimamente ligada a la anterior, la espera. Refrenar el afrontamiento supone el aplazamiento de todo tipo de afrontamiento hasta que no se produzca una mayor y mejor información sobre el problema (Carver et al., 1989). Es una estrategia cognitiva que busca conocer más sobre el problema o aclarar la eficacia de las alternativas, antes de enfrentar el estresor.

Las conductas que se enumeran a continuación describen los ítems que pertenecen a la categoría "refrenar el afrontamiento" de la Escala de Estrategias de Coping (EEC-R) en la versión de Chorot y Sandín (1993): 1) espero conocer bien el problema antes de darle solución; 2) espero el momento oportuno para resolver el problema; 3) pienso que hay un momento oportuno para analizar la situación; 4) hasta que no tenga claridad frente a la situación no puedo darle la mejor solución a los problemas; 5) asumo que es mejor esperar para aclarar el problema; 6) me doy un tiempo para aclarar la situación; 7) frente a un problema, espero conocer bien la situación antes de actuar (Londoño et al., 2006).

2.6.19. Espíritu de lucha

El espíritu de lucha es un estilo de afrontamiento activo positivo marcado por una actitud altamente optimista, acompañada por la búsqueda de mucha información sobre la enfermedad. El paciente acepta el diagnóstico, usa la palabra enfermedad y está determinada a luchar contra ella. También trata de obtener cuanta más información

mejor preguntando a los epertos o leyendo literatura sobre el tema. Denota una actitud optimista, viendo la enfermedad como un reto, adoptando una actitud optimista, queriendo ser informado sobre la enfermedad y formando parte de las decisiones de tratamiento (Fitzpatrick, 2000; Greer, 2007).

Diferentes estudios han observado que el espíritu de lucha correlaciona positivamente con el bienestar psicológico en pacientes con cáncer (Schnoll, Harlow, Brandt y Stolbach, 1998; Greer, 2008), con menores niveles de ansiedad y depresión (Watson et al., 1991), con mejoría de la actividad física (Wilkinson et al., 2012) y de manera negativa con la indefensión (Watson et al., 1994).

Un paciente con actitud de espíritu de lucha es probable que esté determinado a luchar contra la enfermedad, valorándola como un reto e intentando llevar una vida lo más normalizada posible. Esta actitud le motivará a estar informado sobre la enfermedad y a tomar un rol activo en las decisiones relativas al tratamiento (Greer, 2008). En la misma línea, Clasen, Koopman, Angell y Spiegel (1996) observaron que en el colectivo de mujeres con metástasis de cáncer de mama, el espíritu de lucha estaba asociado con un mejor ajuste y correlacionaba de manera negativa con actitudes fatalistas.

2.6.20. Preocupación ansiosa

El paciente reacciona ante el diagnóstico con ansiedad persistente, a veces incluso con depresión, buscando información sobre el cáncer pero con una tendencia a

interpretar la información desde una perspectiva negativa. Puede buscar ayuda de diferentes formas, incluso con medicina alternativa (Greer y Watson, 1987).

2.6.21. Futuro incierto

La incertidumbre, dentro del contexto de la enfermedad crónica, es un concepto importante para entender el proceso de estrés individual y familiar. Sobre este particular, podemos encontrar dos tendencias principales. La primera de ellas es la aportada por la Teoría del estrés familiar de Boss (2002), la cual se centra en el concepto de ambigüedad en los límites, definido como un estado en el que los miembros de la familia tienen incertidumbre sobre los roles que tienen que llevar a cabo dentro del sistema familiar.

La segunda tendencia es la defendida por Mishel y Barron (2012) desde la Teoría de la Incertidumbre en la Enfermedad. Definen la incertidumbre como la incapacidad para determinar el significado de las circunstancias relacionadas con la enfermedad. La persona no puede estructurar o categorizar de manera adecuada la situación, ya que no posee ninguna indicación o información.

Mishel identifica dos antecedentes primarios ligados a su marco teórico. Por una parte, la estructura del estímulo la cual hace referencia a si la trayectoria de la enfermedad se atiene a un patrón, es familiar y congruente con las expectativas. Por otro lado, la estructura de las fuentes de apoyo que incluye a la red de apoyo del individuo como recurso para interpretar la estructura del estímulo, en este caso de la enfermedad y

sus consecuencias. Estos dos factores juntos ayudan a formular un esquema cognitivo con el cual interpretar de las situaciones futuras asociadas a la enfermedad, reduciendo a su vez los niveles de incertidumbre.

La incertidumbre incrementará en la medida en la que aspectos cruciales de la enfermedad queden sin resolver, tales como el diagnóstico, la severidad o las consecuencias, generando una sensación de falta de control sobre las posibles vías de actuación frente a la enfermedad e incrementando el distress emocional (White et al., 2005).

En condiciones de enfermedad crónica en niños, la incertidumbre acerca del futuro ha sido asociada con la salud mental de sus padres en diferentes estudios (Mu, 2005; Holm, Patterson, Rueter y Wamboldt, 2008). Según estas investigaciones, para los familiares con hijos con enfermedades crónicas y degenerativas de las que no se tiene un conocimiento extenso ni de la evolución, tratamiento o posibilidad de curación a largo plazo, la incertidumbre puede generar con facilidad sentimientos de preocupación permanentes, tristeza, indefensión y altos niveles de estrés, especialmente en las madres (Holm et al., 2008).

La incertidumbre experimentada por los padres y madres acerca de la enfermedad de sus hijos/as puede disminuir su confianza para interpretar de manera precisa la salud de estos últimos, interfiriendo en las rutinas familiares y limitando su capacidad para dar información y apoyo útil para que sus hijos/as puedan formar un

esquema de la enfermedad, lo que incrementa la incertidumbre de los afectados/as (Knalf, Deatrock y Gallo, 2008; Stewart, Mishel, Lynn y Terhorst, 2010).

2.6.22. Anticipación

La persona se prepara mentalmente para un deterioro físico. Es común la planificación de cómo se resolverán las cuestiones prácticas del deterioro funcional. Supone la vivencia del presente sin preocupación exagerada por el futuro.

En este sentido, Aspinwall y Taylor (1997) se refieren al "afrontamiento proactivo" como aquel que las personas emplean con el objetivo de prevenir o amortiguar el impacto de eventos potencialmente estresores. Dentro de este modelo se definen cinco componentes interrelacionados del proceso de afrontamiento proactivo: a) recopilación de una reserva de recursos temporales, financieros o sociales; b) reconocimiento de estresores potenciales; c) interpretaciones iniciales de los estresores potenciales; d) esfuerzos preliminares de afrontamiento y e) elicitación o uso del feedback sobre el éxito de los propios esfuerzos.

2.6.23. Secretismo

El manejo de la información es crítica en personas que tienen que sufrir de primera mano una enfermedad, ya sea mental o física. Es probable que no se sientan seguras sobre si hablar o no sobre su situación o de su familiar, qué decir o a quién (Joachim y Acorn, 2000).

Este tipo de afrontamiento no implica negación, pero sí sentimientos de vergüenza en la persona. Se oculta la enfermedad ante los otros y se evitan situaciones que puedan mostrarla (Ahlström y Sjöden, 1994).

Los sentimientos de vergüenza hacen que las personas se escondan de los otros, influyendo negativamente en las relaciones sociales de enfermos crónicos y sus familiares, haciendo que rechacen actividades sociales y no busquen apoyo en familiares y amigos. Se intenta evitar hablar sobre el diagnóstico, provocando dificultades financieras y menos apoyo social en general. Los sentimientos de vergüenza pueden afectar al tratamiento, ya que se retrasa todo lo que tenga que ver con tener que hablar sobre los síntomas, lo que puede ocasionar un agravamiento de la enfermedad. Estos sentimientos pueden crear un sufrimiento emocional añadido que, a su vez, incrementa la carga de la enfermedad, el aislamiento social y el distress (Dirkse y Giese-Davis, 2012).

Diferentes estudios han evidenciado que, entre un cuarto y la mitad de los miembros de la familia con un miembro en la familia con enfermedad mental, piensan que la enfermedad debe ser escondida ya que, de otro modo, sería una fuente de vergüenza para la familia (Ohaeri y Fido, 2001; Shibre, 2001).

Las enfermedades neuromusculares tienen un componente de visibilidad evidente, lo cual aumenta el riesgo de ser rechazado y estigmatizado por los demás y disminuye la capacidad para controlar sus respuestas. Una de las opciones ante esta

situación es hacer uso de estrategias de protección positivas como el humor o negativas como el aislamiento social (Joachim y Acorn, 2000).

2.6.24. Comparación social

La comparación social es la tendencia a relacionar las características propias actuales o potenciales con las de otros, ya sean reales o imaginarias (Buunk, 2005). Es un proceso cognitivo que valora información sobre una o más personas en relación a uno mismo (Wood, 1996).

El hecho de compararse con otros es muy común en personas que tienen que afrontar un problema médico (Tennen, McKee y Affleck, 2000). La ansiedad, el estrés y la incertidumbre incrementan el deseo de compararse con personas que están pasando por la misma situación. Este hecho parece bastante común cuando una persona tiene que afrontar una enfermedad crónica. Dentro de estrategia podemos distinguir dos tipos principales de comparación:

a) Comparación hacia abajo. Comparación que se lleva a cabo con aquellas personas que están peor en relación a la enfermedad o la manera en que se afronta (Wills, 1997). Este tipo de comparación ayuda a afrontar cuando la comparación adquiere la forma de contraste, viéndose a sí mismo en mejor situación que los demás, lo que parece mejorar el humor. También puede tener un valor auto-protector, al aliviar las consecuencias negativas de los acontecimientos estresantes. Sin embargo, cuando la comparación hacia abajo toma la forma de una identificación, por ejemplo, viéndose a sí

mismo en el futuro, hay mayor riesgo de que los efectos sean negativos (Bogart y Helgeson, 2000). Son varios los estudios que valoran cómo el empleo de la comparación hacia abajo puede tener un carácter adaptativo (Buunk, Zurriaga y González, 2006).

b) Comparación hacia arriba, en la que las comparaciones se realizan con aquellas personas que están en mejor situación (Jáuregui, Garrido, Santiago-Fernández y Bautista, 2010). La comparación hacia arriba puede conllevar una posible identificación con la otra persona y puede producir sentimientos de frustración o de envidia (Wood, 1996).

La dirección de la comparación no está directamente relacionada con un estado afectivo positivo o negativo. Según el modelo de identificación-comparación (Buunk, Collins, Taylor, Vanyperen y Dakof, 1990; Brakel, Dijkstra, Buunk y Siero, 2011) la respuesta afectiva depende de la interpretación que se lleva a cabo. Es decir, cuando la comparación se realiza hacia arriba, el sujeto puede concluir que su propio estado no es tan bueno como el de la otra persona (comparando) o, por el contrario, que su estado personal puede mejorar (identificación), generando sentimientos positivos de esperanza. En el mismo sentido, en las comparaciones realizadas hacia abajo, la situación personal puede ser vista como no tan mala como la de otros (comparando) pero con un potencial de empeoramiento (identificación), provocando sentimientos de shock y tristeza (Locock y Brown, 2010).

Con respecto a otras estrategias de afrontamiento, y atendiendo al criterio de Taylor y Lobel (1989), en condiciones de gran estrés, las evaluaciones hacia abajo pueden constituir una estrategia de afrontamiento basada en la emoción dirigida a hacer que la persona se sienta mejor. La exposición a otras personas que están mejor puede ayudar a mejorar las estrategias de afrontamiento dirigidas al problema, ya que el sujeto obtiene información de valor para su vida, supervivencia y afrontamiento exitoso.

El compararse hacia abajo e identificarse hacia arriba parece especialmente asociado con estrategias de afrontamiento positivas como la tendencia a fijarse en el lado positivo de las cosas o comenzar estrategias dirigidas a la resolución del problema, a la reinterpretación, crecimiento personal y a la búsqueda de apoyo social. En cambio, la identificación hacia abajo y la comparación hacia arriba parecen reflejar una tendencia pesimista focalizada hacia los aspectos negativos de las cosas y hacia estrategias de afrontamiento dirigidas a la reducción del distress emocional (Van der Zee, Buunk, Sanderman, Botke y VandenBerg, 2000).

En relación con características de personalidad, la investigación ha mostrado que tanto la comparación hacia arriba como hacia abajo es más común entre personas que utilizan estrategias de afrontamiento activas y es menos probable en personas con altos niveles de neuroticismo. Al contrario, se han encontrado evidencias que indican que sujetos con altos niveles de neuroticismo pueden, en determinadas circunstancias, procesar la información de una manera beneficiosa y adaptativa ya que la información obtenida gracias a la comparación aumenta la sensación de control a la vez que facilita

un modelo de afrontamiento efectivo (Buunk, 1995; Buunk, Brakel, Bennenbroek, Stiegelis, Sanderman, Van den Bergh y Hagedoorn, 2009).

La Teoría de la Sensibilidad a la Comparación Social sugiere que la presencia de un elevado grado de sensibilidad hacia las comparaciones con otros individuos está asociada a personas inseguras para las cuales este tipo de información tiene un gran impacto en sus autovaloraciones. Las personas con escasa sensibilidad a las comparaciones sociales, en cambio, muestran menor número de reacciones ante información derivada de la situación de otras personas (Brakel, Dijkstra, Buunk y Siero, 2011).

2.6.25. Expresión emocional

Esta estrategia canaliza el afrontamiento hacia las manifestaciones expresivas hacia otras personas de la reacción causada por el problema (Fernández-Abascal, 1997).

Se trata de un mecanismo a través del cual el distress puede disminuir, mejorando el bienestar psicológico es mediante la expresión de emociones. Esta estrategia de afrontamiento ayuda a minimizar los posibles pensamientos intrusivos, facilitando el insight, ayudando a estructurar y organizar los pensamientos y sentimientos. Además, puede promover las relaciones sociales, mejorando la comunicación de sentimientos con los demás y la sensación de ser comprendido y aceptado por los otros.

Se ha visto como el hecho de hablar o escribir acerca de eventos traumáticos es física y psicológicamente beneficioso, incluyendo la mejora de la salud física, el funcionamiento inmunológico, la sensación de bienestar, el funcionamiento cognitivo, la integración social y las relaciones sociales y reduciendo el número de visitas a centros médicos (Baddeley y Pennebaker, 2011).

En el otro extremo, la inhibición emocional puede llegar a tener efectos adversos en la salud individual y más concretamente en personas con enfermedades crónicas (Zakowski et al, 2003). En este sentido, las personas que inhiben sus emociones son más propensas a sufrir enfermedades que las que se expresan emocionalmente y son más propensas a adoptar actitudes desadaptativas y de indefensión (Panagopoulou, Kerebergen y Maes, 2002).

Con respecto a la variable género, la mayor parte de los estudios subrayan la tendencia que apunta a que las mujeres son más propensas a expresar sus emociones en comparación con los hombres (Zakowski et al, 2003).

2.7. Estrategias de afrontamiento centradas en el problema

A continuación se describen las principales formas de afrontamiento basadas en el problema utilizadas ante una situación de crisis.

2.7.1. Búsqueda y planificación de soluciones

Esta estrategia de afrontamiento centrada en el problema descrita por Lazarus y Folkman, (1984) hace referencia a los esfuerzos dirigidos a la resolución o manejo del problema causante del estrés, incluyendo estrategias como la búsqueda de información, toma de decisiones, planificación, resolución de conflictos, esfuerzos por adquirir habilidades, acciones instrumentales y orientadas a la tarea. Incluye la movilización de estrategias de afrontamiento para alterar la situación, implicando una aproximación analítica y racional al problema (Folkman et al., 1986; Carver et al., 1989, Fernández-Abascal, 1997).

De este modo, la planificación de soluciones se entiende como una estrategia auto-regulatoria que incluye una simulación mental relacionada con respuestas concretas en situaciones futuras. El empleo de esta estrategia evita las reacciones espontáneas, inefectivas creadas in-situ y potencia estrategias de afrontamiento detalladas y planes de acción concretos para hacer frente a las dificultades de manera anticipada (Sniehotta, Schwarzer, Scholz y Schüz. 2005)

Desde el modelo clásico de D´Zurilla y Goldfried (1971), la resolución de problemas implica las siguientes fases básicas: a) definición del problema incluyendo la interpretación primaria (evaluación del problema) y secundaria (evaluación de las propias habilidades para resolverlo); b) generación de soluciones; c) toma de decisiones; d) implementación de la solución; e) redefinición del problema tras su resolución y f) mantenimiento de actividades destinadas a ayudar a la persona a mantener sus emociones mientras afronta el problema.

Los efectos beneficiosos de la planificación de conductas en la salud tanto física como psicológica se han observado en diferentes estudios realizados con personas con enfermedades crónicas o en otras situaciones relacionadas con la mejora de la salud física (Sniehotta et al., 2005; Gerson et al., 2011). En dichos estudios se ha podido concluir que la planificación de acciones ayuda a las personas a llevar a cabo sus intenciones, frente a estrategias de evitación. Sin embargo, las respuestas habituales, otras intenciones que entran en conflicto u otras demandas, pueden interferir con la ejecución real de los planes de acción.

2.7.2. Búsqueda apoyo social basado en el problema o instrumental

Tendencia a realizar acciones para buscar, en los demás, información y consejo sobre cómo resolver el problema. Algunas formas de apoyo social facilitan beneficios tangibles, tales como dinero u otras cuestiones prácticas. El apoyo social es fuente de información útil y necesaria así como un recurso para poder realizar tareas beneficiosas. Este tipo de apoyo resulta más beneficioso cuando los estresores son tangibles o cuando

la respuesta de afrontamiento se centra en el problema. Por otra parte, contar con un buen soporte social contribuye a mejorar la imagen que uno tiene sobre sí mismo, lo que facilita una mayor sensación de bienestar y de estima (Carver et al., 1989; Carpenter y Scott, 1992).

2.7.3. Búsqueda de apoyo profesional

Búsqueda del recurso profesional para solucionar el problema o consecuencias del mismo. El apoyo social por parte del profesional es básico, especialmente en el momento del diagnóstico. En este sentido, el estudio de Lode et al. (2007) con pacientes con esclerosis múltiple concluye que, cuanto más satisfecho está el paciente con la información que se le da, más probabilidad de que utilice estrategias de afrontamiento centradas en el problema, como la planificación o la búsqueda de apoyo social instrumental a lo largo de la enfermedad.

2.7.4. Confrontación

La confrontación, centrada en la resolución del problema (Fokman y Lazarus, 1985), se refiere a la actuación dirigida al enfrentamiento directo de las situaciones, que habitualmente se traduce en el uso de estrategias asertivas. Estas estrategias, en ocasiones, pueden implicar intentos de solucionar directamente la situación mediante conductas directas, arriesgadas y hostiles empleadas para alterar la situación (Folkman et al., 1986).

Puede ser adaptativa en determinadas circunstancias, mientras que en otras puede no tener éxito (Radnitz y Tiersky, 2007). El meta-análisis efectuado por Penley, Tomaka y Wiebe (2002) con los datos de 15 estudios, revela una asociación negativa significativa entre la confrontación y la salud psicológica, especialmente en situaciones de estrés agudo y no tanto en el caso de estresores crónicos. De esta manera, los autores asocian este tipo de afrontamiento con distress psicológico y afectividad negativa, tal vez porque provoca que la situación empeore o dificulte las relaciones interpersonales.

CAPÍTULO 3

Capítulo 3. Afrontamiento del estrés en familiares: revisión de la literatura

3.1. Introducción

Cuando un sistema familiar no experimenta estrés, se puede observar un patrón de rutinas diarias más o menos predecibles, en el que los miembros interaccionan e intercambian apoyo emocional e instrumental sin dificultades. El nacimiento de un niño/a con una enfermedad grave, como una enfermedad neuromuscular, representa una crisis vital para las familias, especialmente para los padres y madres, que tienen que afrontar un reto inesperado que va a afectar de manera significativa en sus vidas. En las fases iniciales, cuando los padres son informados de que su hijo/a padece una discapacidad, la pérdida del niño imaginado y la discrepancia entre las expectativas y la realidad desencadena una reacción cargada de duelo y pérdida (Ziolko, 1991).

Aunque el niño con enfermedad neuromuscular es identificado a menudo como el paciente, el entorno en el que vive puede estar caracterizado por un estrés psicológico crónico y de un duelo prolongado. El cuidado de un niño/a con una enfermedad neuromuscular puede tener un profundo efecto en la vida de sus padres. El estrés crónico es uno de los problemas más importantes a los que los padres y madres con hijos afectados con una enfermedad neurodegenerativa tienen que hacer frente (Buchanan, LaBarbera, Roelofs y Olson, 1979). Para McCubbin, Thompson y McCubbin (1996) un estresor familiar hace referencia a las demandas que afectan a la

familia y que producen cambios en el sistema familiar. Dicho estresor puede amenazar la estabilidad de la unidad familiar o poner en juego sus recursos y capacidades.

Cuando una familia tiene que enfrentarse a esta situación, el papel de los padres es promover la adaptación saludable del niño/a. En esta línea, Lazarus y Folkman (1984) entienden el afrontamiento como aquellos esfuerzos cognitivos y conductuales constantemente cambiantes que se desarrollan para manejar (minimizar, evitar, tolerar, aceptar) las demandas específicas externas y/ o internas que son evaluadas como excedentes o desbordantes de los recursos del individuo. Las estrategias de afrontamiento familiar hacen referencia al proceso activo y práctico de cara a poder manejar, adaptarse o hacer frente con una situación estresante. En este proceso hay que tener en cuenta los recursos familiares, como son las características o fuerzas que la familia tiene a su disposición (McCubbin y Dhal, 1985).

En la literatura científica se han descrito algunos de los determinantes que afectan a la manera en la que las familias afrontan el hecho que su hijo tenga una discapacidad, entre los que se destacan la edad del niño, la estructura y tamaño de la familia, la complejidad de las demandas familiares, la visibilidad de la enfermedad, las creencias religiosas, las cargas económicas o el ciclo en el que se encuentra la familia (Power y Dell Orto, 1980).

Para Rodríguez-Marín, Pastor y López-Roig (1993), la adaptación a la enfermedad crónica está determinada por múltiples factores:

a) Características de la enfermedad: duración, gravedad, forma de aparición, naturaleza y extensión de limitaciones o cambios visibles en la apariencia física.
b) Características del individuo: creencias, percepción de control, experiencias previas, carácter, autoestima, vulnerabilidad, entre otras.
c) Sistema social: recursos estructurales y sociales, redes y apoyo social.

El proceso de afrontamiento familiar conlleva, de esta manera, una serie de niveles a través de los cuales los diferentes miembros, tienen que avanzar. En el primer nivel, cuando una familia tiene que hacer frente a un estresor, el sistema familiar emplea una amplia variedad de estrategias de afrontamiento destinadas a modificar y crear nuevos patrones de la conducta, roles y normas establecidas. Cuando se resuelve este nivel con éxito, la situación de normalidad vuelve y la situación estresante es superada. Sin embargo, cuando esta fase no es exitosa, las familias van encontrándose en una situación progresivamente más difícil. Las familias necesitan realizar cambios más profundos en sus ideas más básicas, así como reorganizar las prioridades (Watzlawick, Weakland y Fish, 1974). En este proceso hay que tener en cuenta que los miembros de la familia pueden encontrarse en diferente nivel a lo largo del mismo proceso (Moos, 1989).

Una vez superada la fase inicial marcada por el shock y la negación, los familiares, tienen que hacer frente a sentimientos confusos como la culpa, tienen que manejar la ansiedad o la depresión y servir de punto de apoyo para sus hijos/as, evitando ser demasiado protectores. Durante esta fase, los progenitores se enfrentan a

sentimientos ambivalentes de amor por su hijo/a, resentimiento por el hecho de que no es normal, felicidad por sentirse padre o madre o enfado por la situación. Una vez que los padres y madres entienden y aceptan sus emociones, el proceso de adaptación comienza aceptando el hecho de que tienen un hijo/a enfermo/a y enfrentándose a los sentimientos contradictorios que experimentan. Cuando los progenitores son capaces de ver las necesidades especiales que su hijo/a requiere, podrán darles respuesta de manera constructiva, generándose una nueva reorganización familiar que incluye una aceptación positiva del niño/a (Kaplan y Mason, 1960; Drotar et al., 1975; Moos, 1984).

Un factor crucial que determina la aceptación de la enfermedad por parte de los padres y madres es el manejo adecuado del resentimiento y los sentimientos de culpabilidad ante la posibilidad de haber sido los transmisores de la enfermedad. La preocupación puede estar relacionada con algunos factores predisponentes como, por ejemplo, que la enfermedad aparezca en el nacimiento o poco después, que la haya padecido algún miembro de la familia, así como muertes anteriores (Power y Dell Orto, 1980).

La experiencia de tener un hijo/a con discapacidad puede fortalecer a las familias una vez que han desarrollado las estrategias de afrontamiento adecuadas para hacer frente a la situación (Thompson, 2009). Los padres y madres identifican a sus hijos/a como causa del fortalecimiento de los lazos familiares, de su fe o de la expansión de la red social familiar. Otras fortalezas que pueden aparecer son el sentimiento de orgullo y realización, un mayor conocimiento sobre la enfermedad, mayor nivel de tolerancia, sensibilidad y paciencia. Muchos familiares experimentan una sensación de

crecimiento personal, mayor autocontrol y un cambio de prioridades, viviendo la vida de una manera más lenta (Paster, Brandwein y Walsh, 2009).

Los padres y madres que se han adaptado con satisfacción a los retos de tener un hijo/a con una enfermedad crónica, le imponen sólo lo necesario y le plantean restricciones realistas, le motivan para que se cuide a sí mismo y para que acuda regularmente al colegio, a la vez que promueven actividades físicas, dentro de lo razonable, con compañeros de su edad. Además, estos padres y madres son capaces de aislar y evitar su ansiedad, especialmente durante crisis médicas. Cuando dichas crisis terminan, los padres y madres pueden experimentar un fenómeno de efecto rebote, dando como resultado sentimientos de depresión e irritabilidad. Otra de las estrategias efectivas para los padres y madres es emplear estrategias cognitivas, aprendiendo sobre todos los aspectos posibles sobre la enfermedad o compartiendo sus experiencias con otros afectados (Mattson, 1980).

En consonancia con los modelos cognitivos del estrés, así como con el proceso de afrontamiento, es importante tener en cuenta la interpretación o percepción de cada individuo dentro del sistema familiar, sobre el evento estresante de cara a determinar cómo lo afrontará. Esta evaluación individual hace referencia a la percepción o juicio de una situación concreta que va a influir en el nivel de estrés en términos del significado individual, objetivos y recursos personales. El cambio en una persona puede tener un efecto en el sistema familiar (Chen y Instone, 2008).

El impacto negativo de la enfermedad crónica en la salud psicológica de los miembros de la familia a veces es más fuerte que el impacto psicológico directo en el paciente (Holmes y Deb, 2003). Sin embargo, el número de estudios que valoran el impacto de la enfermedad neuromuscular en los miembros de la familia de los afectados es escaso (Böström y Ahlström, G., 2006).

3.2. Afrontamiento del estrés: familiares con niños con una enfermedad crónica o discapacidad. Variables sociodemográficas

En el proceso de afrontamiento de una enfermedad de un miembro de la familia, hay que tener en cuenta variables sociodemográficas tales como la edad y el género de los padres.

Las diferencias de género de los padres de niños con discapacidad han sido estudiadas dentro de la investigación sobre estrés y afrontamiento (Gray, 2003; Thompson, 2009). Lo primero que se remarca en la literatura científica relacionada con el estrés y el género es que, en general, las mujeres tienden a experimentar y referir un mayor nivel de estrés psicológico y fatiga que los hombres (Eaton y Bradley, 2008).

Las madres en la mayoría de los casos son las cuidadoras principales, mientras que los padres atienden prioritariamente a los asuntos económicos, lo que genera un impacto diferente en cada progenitor. La investigación ha mostrado que la carga a la que están sometidas las madres está asociada con un detrimento de la salud de las mismas, con un incremento del estrés y de la depresión, problemas psicosomáticos, así

como de los sentimientos de culpabilidad, en comparación con los padres (Burton, Lethbridge y Phillips, 2008). Por otra parte, las expectativas sociales y la influencia del rol de género también pueden influir en estos resultados, ya que socialmente se espera que las mujeres expresen en mayor medida sus experiencias emocionales (Davis, Matthews y Twamley, 1999).

Generalmente, la literatura científica destaca que los hombres tienen mayor probabilidad de emplear estrategias centradas en el problema, mientras que las mujeres buscan en mayor medida apoyo social emocional (Ptacek, Smith y Zanas, 1992; Clarke, McCarthy, Downie, Ashley y Anderson, 2009). Una de las explicaciones que se aportan desde teorías relacionadas con la socialización, defiende que las mujeres han sido educadas en el desarrollo de roles de cuidado de los demás, de expresión de las emociones y de búsqueda de apoyo social. Por otra parte, de los hombres se espera que desarrollen destrezas asociadas a la acción, como el riesgo, asertividad y que mantengan la calma en situaciones de peligro (González-Morales, Peiró, Rodríguez y Greenglass, 2006).

Otros estudios, sin embargo, no encuentran evidencias de que los hombres tiendan a utilizar estrategias de afrontamiento centradas en el problema. En esta línea, el meta-análisis que llevaron a cabo Tamres et al. (2002) analizando 50 estudios para evaluar la influencia del género en 17 estrategias de afrontamiento, revela que las mujeres utilizan en mayor medida todas las estrategias de afrontamiento. Además, las mujeres empleaban en mayor grado que los hombres una gran variedad de conductas que incluían tanto estrategias centradas en la emoción, como en el problema. Destacan

el uso de estrategias como el afrontamiento activo, la búsqueda de apoyo social con motivos instrumentales, planificación, búsqueda de apoyo social por razones emocionales, evitación, reinterpretación positiva, rumiación, pensamiento desiderativo y uso de religión.

En general, parece más probable que los hombres afronten sentimientos depresivos por medio de la distracción, practicando deportes, involucrándose en hobbies o a través del abuso de sustancias. Las mujeres emplean en mayor medida estrategias de afrontamiento centradas en la emoción: llorar, buscar apoyo social o reflexionar sobre las causas e implicaciones de su depresión (Angst et al., 2002).

Se han observado reacciones similares entre padres y madres en variables relacionadas con la aceptación social del hijo y el deseo de verle como único pero no diferente a otros niños. Para ambos progenitores, la autoestima es un predictor significativo de síntomas depresivos (Pelchat, Lefebvre, Perreault, 2003). Trute (1995) también observó, con respecto a diferencias de género, que los padres referían mayor ansiedad si el afectado era hombre, hecho que no fue consistente para las madres.

Algunos estudios defienden que existen diferencias de género en relación al uso de los recursos de apoyo social (Trute, Worthington y Hiebert-Murphy, 2008). Por ejemplo, las mujeres y los hombres difieren en la manera en la que participan en las relaciones sociales y en los recursos que buscan de dichas relaciones. Las mujeres son más propensas a buscar y recibir apoyo social en los miembros de la familia y en los amigos, mientras que los hombres se centran en una persona, principalmente en su

cónyuge. Por un lado, los hombres se socializan para afrontar la situación desde un punto de vista instrumental y las mujeres, por su parte, tienden a socializarse con el objetivo de expresar emociones y buscar apoyo emocional en los demás (Ptacek et al., 1992).

Estudios recientes (Weiss, 2002, Kesimci, Göral y Gencöz, 2005) sugieren que las mujeres tienen a experimentar mayor crecimiento relacionado con el estrés que los hombres. Esto puede deberse al hecho de que las mujeres sufren mayores niveles de estrés después de un evento vital estresante, por lo que el crecimiento personal se experimenta con más probabilidad en el colectivo de mujeres. Otra explicación apunta a que la población femenina, al buscar en mayor medida apoyo social, éste puede ser un factor clave en la potenciación del crecimiento personal ligado al estrés.

Con respecto a la variable edad y su posible influencia en el empleo de estrategias de afrontamiento, se pueden destacar dos teorías principales (LaChapelle y Hadjistavropoulos, 2005). Por un lado, la Teoría del Desarrollo, atribuye los cambios en el afrontamiento a la naturaleza progresiva de las diferentes etapas de desarrollo, más que a los estresores mismos. Dentro de esta teoría, destacan dos hipótesis: a) la hipótesis de la regresión (Gutmann, 1974), según la cual las personas vuelven a emplear estrategias utilizadas previamente y menos efectivas y b) la hipótesis del crecimiento (Vaillant, 1994) que afirma que las personas mayores afrontan las situaciones de manera más efectiva por su experiencia y conocimiento.

Por otro lado, la teoría contextual defiende que existen escasas diferencias relativas a la manera en la que las personas se enfrentan a los estresores. Es la naturaleza de estos últimos lo que va a determinar en gran medida las diferencias (LaChapelle y Hadjistavropoulos, 2005). Otros autores también han defendido la teoría de que el estilo de afrontamiento es relativamente estable durante el proceso vital y que la edad no predice el empleo de estrategias de afrontamiento basadas en la emoción ni en basadas en el problema (Trouillet, Gana, Lourel y Fort, 2009).

El incremento de la edad materna está asociado con un menor nivel de estrés, si tenemos en cuenta el rendimiento individual. Sin embargo, según Failla y Jones (1991) el hecho de tener más edad predice negativamente el funcionamiento familiar en madres con niños con discapacidad, posiblemente por haber pasado más tiempo asumiendo el rol de cuidador y por el incremento de las posibilidades de tener más hijos aparte del afectado. En contraste, otros autores como Trute (1990) no encontraron correlación entre la edad parental y el funcionamiento familiar en casos de padres y madres con hijos con trastornos del neurodesarrollo. Según el mismo autor (Trute et al., 2012), la edad de la madre según es un a variable predictora significativa relacionada con el ajuste familiar a largo plazo, junto con las emociones de tono positivo. Este hallazgo supone que las madres más mayores, con mayor nivel de positividad, alcanzan mayor nivel de ajuste familiar a largo plazo. La conjunción de ambas variables, mayor edad y positividad, pueden lograr que las madres hayan desarrollado, a través del efecto acumulativo en el tiempo, una capacidad de resiliencia y de afrontamiento adaptativo ante los estresores.

Atendiendo a los resultados del estudio de Whitti (2003) con una muestra de personas pertenecientes de diferentes grupos de edad (17-23; 40-47 y 63-70), hay una tendencia a que los participantes más jóvenes empleen con más probabilidad estrategias de afrontamiento que los autores definen como inmaduras que los dos subgrupos de mayores. Sin embargo, entre estos dos últimos subgrupos no se observan diferencias en cuanto a las estrategias empleadas.

3.3. Afrontamiento del estrés en familiares con niños con enfermedades neuromusculares: revisión de la literatura.

En la literatura científica podemos encontrar diferentes estudios sobre estrés y afrontamiento realizados con padres y madres de niños con enfermedades neuromusculares, principalmente la distrofia tipo Duchenne (ver tabla 1). En general, estos estudios se pueden clasificar desde el punto de vista metodológico desde dos perspectivas, la cualitativa y la cuantitativa.

3.3.1. Estudios cualitativos

Uno de los primeros estudios cualitativos que evalúa los diferentes estresores que tienen que afrontar las familias con un miembro con una enfermedad neuromuscular en la familia fue el realizado por Morrow y Cohen (1954). Estos autores entrevistaron a 29 jóvenes con distrofia muscular con edades entre 17 y 28 y a sus familiares. Observaron en la mitad de los casos una tendencia a la inmadurez emocional, así como un control emocional, expresión y relaciones inapropiados para su edad. Un aspecto

destacado que se observó fue la fuerte dependencia emocional, especialmente hacia las madres, la tendencia al aislamiento de los afectados/as ligada una gran desarrollo imaginativo, así como la escasa tolerancia a la frustración. En la misma línea, la mayor parte de los padres y madres mencionan la dependencia emocional, la baja tolerancia a la frustración y la tendencia al aislamiento social y emocional de sus hijos/as.

En más de las tres cuartas partes de los casos estudiados, los afectados/as necesitaban ayuda a la hora de comer, vestir, asearse e ir al baño. Estas limitaciones físicas fueron descritas por los padres y madres como uno de los mayores problemas sobre todo para las madres.

En las entrevistas se destaca la importancia de los problemas psicológicos de los padres y madres, la curiosidad de los vecinos o desconocidos sobre el problema de sus hijos/as o las situaciones generadas por las atenciones hacia los hijos sanos de la pareja. También se revelan los problemas de relación entre los/as hijos/as afectados/as y los sanos/as, así como la heredabilidad de la enfermedad. Otra de las situaciones que los padres y madres tienen que decidir es si escolarizan a su hijo/a afectado/a en la escuela regular, en una escuela especial o si es mejor que una profesora acuda al domicilio familiar.

La mortalidad prematura es un tema escasamente mencionado pero, a su vez, representa uno de los aspectos más importantes que los padres y madres tienen que afrontar. Alguno se muestran activamente preocupados, otros intentan reprimir este

aspecto de su conciencia, mientras que otros lo aceptan y muestran un cierto grado de ajuste.

Los autores del estudio observan en un tercio de la muestra la ausencia de intereses fuera de la familia, aunque casi la mitad de ellos formaban parte activa de asociaciones de distrofia muscular.

Otros factores asociados a la enfermedad que los padres y madres tienen que afrontar, tienen que ver con el deterioro intelectual frecuentemente asociado a la enfermedad, la falta de libertad en las actividades familiares, excesivos gastos o cambio en las expectativas y planes de los padres sobre el futuro de sus hijos/as.

En las conclusiones del estudio, los autores destacan que casi la mitad de los pacientes mostraban un ajuste satisfactorio relacionado a su vez con una buena adaptación familiar, en la que hay una aceptación realista de las necesidades del hijo/a y de sus limitaciones y capacidades. Entre sus recomendaciones destacan los efectos positivos de la escolarización fuera de casa, la realización de actividades sociales, el desarrollo de hobbies, así como la necesidad de que los padres y madres tengan tiempo de ocio con el fin de conseguir alivio físico y emocional.

Otro de los estudios que analizan los mecanismos de afrontamiento de los padres y madres con hijos afectados por enfermedades neuromusculares es el de Bregman (1980). Este autor analizó los mecanismos de afrontamiento desde un punto de vista positivo. Para lograrlo, convivió a lo largo de un periodo de 4 días y noches con 6

familias cuyos hijos estaban diagnosticados de distrofia muscular de Duchenne y de enfermedad de Werdnig-Hoffman. Su objetivo fue observar y analizar los mecanismos de afrontamiento empleados por las familias, desde el punto de vista de las estrategias de afrontamiento positivas.

A partir de las observaciones de Bregman emergieron cuatro tipos de estrategias de afrontamiento. En primer lugar, el autor observa conductas que intentan centralizar la vivencia en el presente. Este objetivo se consigue organizando las actividades del día a día tanto del niño como de los padres, buscando experiencias motivadoras e interesantes, planificando actividades dentro del marco de la enfermedad o ayudando al niño a formular metas realistas.

Otro de los mecanismos de afrontamiento es el intento por parte de los padres y madres de vivir lo más normalizadamente posible. Para lograr este objetivo se llevan a cabo las siguientes estrategias: mantenimiento de regularidad en los horarios, provisión de oportunidades para que el niño sea lo más independiente posible y para que tenga las mismas oportunidades que los niños sanos. En el mismo sentido, también se considera importante la educación del resto de la sociedad sobre las necesidades de sus hijos.

El tercer mecanismo de afrontamiento observado por Bregman se refiere a los intentos de los padres por minimizar la vulnerabilidad familiar, a través del desarrollo de fuentes creíbles de información y apoyo o la búsqueda de alternativas.

Por otra parte, el desarrollo de fuerzas y potencialidades de los padres fue uno de los mecanismos de afrontamiento descritos, destacando el intento por responder a cada necesidad física o emocional de la mejor manera posible en el momento presente.

Además, se buscan actividades que reduzcan los niveles de estrés, como por ejemplo llorar o participar en actividades de ocio. En relación a esta última estrategia, los padres desarrollan redes de apoyo, intercambiando preocupaciones sobre temas que les preocupan con sus parejas, con amigos íntimos, otros miembros de la familia, con otros padres en la misma situación o con el equipo médico.

Firth, Gardner-Medwin, Hosking y Wilkinson (1983) realizaron un estudio cualitativo en el que participaron 16 padres y 53 madres de niños y jóvenes con distrofia muscular de Duchenne. El objetivo fue profundizar en las experiencias de los padres y madres en relación a la vivencia de la enfermedad. Los autores registraron un de 113 problemáticas que condensaron finalmente en 20 problemas agrupados en tres categorías. Además de las dificultades relacionadas con los servicios sociosanitarios (p.e. obtención de ayudas, diagnóstico) y las complicaciones prácticas del cuidado del afectado en el día a día (p.e. aseo, desplazamientos, alimentación), también se observaron problemas emocionales como la soledad o la depresión.

Se hace referencia al momento del diagnóstico como uno de los mayores estresores a los que se tienen que enfrentar los progenitores. En este sentido, es importante resaltar la demora que se da entre la aparición de los primeros síntomas y la confirmación diagnóstica, que en esta muestra se encuentre en una media de 2,5 años.

La manera de transmitir el diagnóstico o la escasa información recibida fueron las razones más comunes que se argumentaron para justificar la falta de satisfacción de los padres y madres.

Witte (1985) evaluó diferentes aspectos relativos al estrés en un grupo de seis familiares de niños con distrofia muscular de Duchenne. Para ello, llevaron a cabo entrevistas con objeto de investigar los procesos de afrontamiento de la familia a lo largo de la enfermedad. En primer lugar, se observa que los padres y madres tienen que afrontar una gran cantidad de estrés, están continuamente haciendo frente a los déficits progresivos que sus hijos tienen, a la vez que son testigos de la indiferencia de las instituciones. Dicho estrés conlleva un gran número de problemas psicosomáticos y dificultades laborales.

Otra de las dificultades que los familiares tienen que hacer frente es la comunicación con sus hijos sobre la enfermedad, situación que suelen evitar. Suelen responder con cierta ambivalencia sobre el hecho de dar información más directa a los niños, sobre todo con los aspectos relacionados con las consecuencias a largo plazo de la enfermedad y la muerte.

Buchanan, Labarbera, Roelofs y Olson (1989) realizaron un estudio a través de la realización de 25 entrevistas a familiares (23 madres y 2 padres) con hijos diagnosticados con distrofia muscular de Duchenne. Estos autores consideran que las tensiones emocionales en la familia representan el mayor problema en el manejo de esta distrofia. El mayor problema identificado por estos familiares tiene que ver con

problemas psicológicos, hasta en un 76%, mientras que solo el 14% de los entrevistados se refirió a los aspectos físicos. Entre las preocupaciones psicológicas más mencionadas se encontraban la anticipación de futuros estresores, entre los que cabe destacar la falta de predictibilidad de la evolución de la enfermedad. Otras preocupaciones de los entrevistados/as tuvieron que ver con el miedo derivado de tener que explicar la enfermedad a sus hijos, los celos entre hermanos enfermos y sanos, las reacciones de los amigos y familiares, los problemas prácticos del día a día o la culpabilidad asociada a los aspectos genéticos del trastorno.

Una variable importante que ayudaba a que los progenitores redujeran el impacto psicológico de la enfermedad fue el hecho de tener antecedentes en la familia, realidad que daba la oportunidad de anticipar el diagnóstico. Por su parte, las familias que no tenían antecedentes familiares describían su experiencia en términos más dramáticos.

Por su parte, los conflictos maritales se observaron en aproximadamente la mitad de la muestra entrevistada. Estos conflictos estuvieron relacionados con discusiones sobre el cuidado de los hijos, la forma de impartir disciplina, la fatiga generada por los constantes cuidados, así como la interferencia de la familia extensa. Una de las maneras por las que algunas parejas tenían de adaptarse a estas situaciones de estrés era entregando sus vidas completamente al cuidado del hijo enfermo. De los 22 matrimonios existentes, cuatro parejas dijeron que la situación les había hecho más fuerte como matrimonio, seis parejas habían acabado en divorcio, mientras que en las 12 restantes parecía existir una relación marital estable.

El estrés crónico derivado del progresivo debilitamiento de la enfermedad provocaba que los padres y madres utilizaran diferentes estrategias de afrontamiento. En las primeras fases de adaptación, aparecían diferentes formas de negación. Los padres y madres rechazaban el diagnóstico, así como recibir otras opiniones. En algunas madres se observaba aislamiento social como una forma de negación. También observaron pensamientos mágicos, especialmente por parte de las madres, que estaban convencidas de que la enfermedad no iba a progresar tan rápidamente o que podía ocurrir una remisión. Los autores resaltan que las estrategias de negación pueden ser una forma efectiva de reducir el impacto inicial y permitir a los familiares una mejor capacidad de ajuste.

A partir del estudio de estas familias, los autores enumeran cuatro aspectos importantes que compartían las familias mejor ajustadas: comunicación abierta y sincera entre ambos miembros de la pareja, orientación hacia las actividades y retos actuales, organización y rutina del tiempo libre de la pareja y apoyo externo a la propia familia nuclear.

Gagliardi (1991) estudió la experiencia de tres familias con hijos con Duchenne a través del enfoque etnográfico. Este enfoque conlleva la participación y observación del investigador en actividades de la vida diaria del afectado y de la familia. A través del análisis de las anotaciones realizadas durante dichas observaciones, la autora y los colaboradores del estudio identifican una serie de temas asociados al proceso de ajuste a la enfermedad.

En la primera fase destaca la desilusión y la falta de esperanza ante el inevitable avance de la enfermedad. Esta última se hace más visible cuando el niño interactúa con el entorno, provocando un gran impacto emocional cuando la familia es consciente de que el niño es diferente. En una segunda fase, los miembros adoptan roles y mecanismos de afrontamiento para afrontar el estrés. Por ejemplo, las madres se ven obligadas a abandonar sus empleos y los padres tienen que seguir trabajando para afrontar las cargas financieras. El mundo se ve reducido a causa de nuevas barreras exteriores e internas. Los cuidadores, especialmente las madres, tienen que permanecer en casa más tiempo, apareciendo sentimientos de soledad. En la última fase, denominada por la autora de resolución, tanto los niños como los padres y madres comienzan a dar importancia a participar en actividades desarrolladas fuera de casa y a reconocer que sus vidas tienen que continuar y cambiar para adaptarse a la nueva situación.

Green y Murton (1996) evaluaron la percepción de 157 madres y 132 padres sobre el momento del diagnóstico de la enfermedad de sus hijos afectados por distrofia tipo Duchenne. Para dicho fin, se envió a los domicilios de las familias un cuestionario *ad hoc* con preguntas relacionadas con el diagnóstico y sus niveles de satisfacción. Entre las variables que no se encontraron relacionadas con la satisfacción parental, el estudio describe los siguientes: año del diagnóstico, edad del niño, tiempo transcurrido entre las sospechas y el diagnóstico, presencia o no del niño en ese momento, conocimientos previos sobre la enfermedad y número de profesionales presentes.

Por otro lado, las variables que sí mostraron relación significativa con niveles altos de satisfacción con respecto a la forma de comunicar el diagnóstico, destacan la comprensión y recuerdo de los que se les dijo, información adecuada, mayor nivel educativo de los padres y presencia de los dos progenitores. Además, la empatía y la franqueza fueron altamente valoradas a pesar de la naturaleza estresante del mensaje.

Bothwell et al. (2002) analizaron mediante cuestionarios las percepciones de 31 familiares de niños con Duchenne sobre la importancia y valoración de los servicios recibidos (psicoterapia, neurología, trabajo social), los aspectos relacionados con la salud (infecciones, caídas, movilidad, medicación, ventilación asistida) y sobre los aspectos relacionados con la calidad de vida (aislamiento social, depresión, ira, problemas económicos).

En relación al apartado referido a los servicios ofertados por el hospital, los padres y madres destacan la Fisioterapia en primer lugar, aunque también se menciona la importancia de la genética. Los servicios de Psicología y Psiquiatría rara vez se percibieron como muy importantes. Los aspectos ligados a la salud que se anticipaban en mayor medida fueron la falta de movilidad, ventilación asistida, infecciones y caídas. Otras preocupaciones parentales fueron aquellas relacionadas con la educación o la habilidad de la escuela para adaptarse a los problemas del niño. Los problemas económicos, la ira y el aislamiento social son aspectos relevantes en el presente y, además, se anticipa su empeoramiento en el futuro.

Se observa una diferencia en cuanto a los años transcurridos desde el diagnóstico. En este sentido, los padres y madres con hijos con un diagnóstico realizado hace menos de 6 años otorgaban mayor importancia a la investigación genética y posibles tratamientos. Por su parte, los padres y madres con hijos con un diagnóstico realizado hace más de 6 años daban mayor importancia a los servicios psiquiátricos.

El estudio llevado a cabo por Webb en el año 2005 con una muestra de trece madres y ocho padres de niños con distrofia muscular de Duchenne, aporta conclusiones optimistas sobre el proceso de adaptación y afrontamiento de los padres. Utilizando entrevistas semiestructuradas y, desde la Teoría Fundamentada, llega a una serie de conclusiones acerca de diferentes temáticas derivadas del proceso de adaptación a la enfermedad. Para empezar, después del proceso diagnóstico, los padres y madres del estudio comienzan una nueva vida con sus hijos, demostrando una capacidad de resiliencia y una habilidad de adoptar estrategias de afrontamiento efectivas y de una forma rápida.

De forma contraria a lo que se encuentra en la literatura, como en el caso de Buchanan et al., (1979) que describen mecanismos de afrontamiento como el pensamiento mágico, sobreprotección, pérdida de disciplina del niño o en el caso de Harold y Guthrie (1986), que descubren en los padres sentimientos pesimistas y negativos, los padres del estudio de Webb afrontan la enfermedad de una forma realista y positiva.

Desde esta perspectiva positiva, aprenden lo que pueden acerca del trastorno, sobre lo que pueden esperar de su progreso, hablando con otros padres, ajustando sus prioridades, buscando el apoyo apropiado y estando actualizados con respecto a los estudios más recientes. Por otro lado, los padres informan del uso exitoso de bastones, andadores, monopatines eléctricos, silla de ruedas que mantiene el nivel de independencia y de modificaciones de escaleras, obstáculos, etc. Hay que destacar que el uso de Internet para encontrar la máxima información posible fue muy importante, operando bajo la perspectiva de que el saber es poder.

Smith (2008) llevó a cabo un estudio cualitativo con seis madres y un padre cuyos hijos habían fallecido debido a una enfermedad neuromuscular degenerativa. El objetivo de la autora fue indagar, mediante el análisis temático, las experiencias y necesidad de dichos padres fallecidos con edades entre 3 y 21 años. Los temas principales que emergieron tras el análisis y que tenían que ver con las experiencias de los padres incluyeron la presencia de estrés, cansancio extremo, afrontamiento de cambios constantes, anticipación y tristeza intensa.

En cuanto a las fuentes de estrés, los padres y madres describen las siguientes: enfrentarse a complejas necesidades médicas, educativas y sociales relacionadas con la condición de su hijo, afrontar la progresión inevitable y las consecuencias negativas a largo plazo. También supone un estrés adicional el hecho de ser juzgados por profesionales y otras personas, el tener que luchar por encontrar información, servicios de calidad y por último, el aislamiento social.

A partir de los testimonios de los participantes, surgieron diferentes tipos de necesidades tales como la sensación de esperanza, el acceso a la información, a recursos de apoyo y a redes sociales, así como a poder optar a un abanico de opciones.

Por último, los padres y madres apreciaban el acceso al apoyo proveniente de los médicos a lo largo de la vida del niño, la conexión con las actividades que forman parte de él, así como formas de apoyo más allá de los grupos de duelo.

Otro estresor relacionado con los cuidados de las enfermedades neuromusculares, que afectan directamente a la familia, tienen que ver con las molestias físicas, como los dolores de espalda y que pueden estar relacionadas con el uso y estado de la silla de ruedas, el tipo de casa, los accesos, escaleras, pasillos y recibidor, sala de estar, dormitorio, cocina y baño (Düger, Yilmaz, Aki, Kayihan y Karaduman, 2003). En este sentido, los autores del estudio consideran recomendable estructurar un programa de salud que tenga como objetivo la protección y prevención de dolores musculares, así como arreglos en el hogar y eliminación de barreras arquitectónicas.

En el sistema familiar, no podemos olvidarnos de un posible estresor que afecta de manera significativa a los padres: los posibles hermanos/as de los afectados/as. Los hermanos también pueden experimentar distress relacionado con tener un hermano con problemas, directamente, al verse en la obligación de cuidarles o indirectamente, a través del entorno familiar (Cohen, 1999). Las relaciones personales entre hermanos tienden a ser más fuertes en familias que tiene un hermano/ a con enfermedad crónica o retraso mental aunque también pueden aparecer problemas de celos entre ellos. Pueden

experimentar resentimiento y odio tanto con sus padres como por su hermano discapacitado y pueden no entender por qué se ha roto la rutina familiar y la atención de sus padres (Ziolko, 1991).

Las complicaciones a nivel respiratorio que pueden darse en el desarrollo de la distrofia de Duchenne, suponen una importante fuente de estrés que los familiares tienen que afrontar. Para analizar este aspecto, Mah, Thannhauser, McNeil y Dewey (2008) describieron la experiencia de 15 madres y 4 padres con niños con distrofia muscular de Duchenne con ventilación mecánica en casa. En este caso, las entrevistas de los padres y madres se analizaron bajo una perspectiva cualitativa basada en el enfoque fenomenológico, con la ayuda de la herramienta NVivo7.0. La temática central que surge de este estudio es que los padres experimentan cambios significativos en su rutina a raíz de la incorporación de la ventilación mecánica.

Los padres y madres pueden experimentar estrés inicial cuando tienen que enfrentarse por primera vez al funcionamiento de la máquina, aunque va disminuyendo a medida que se van familiarizando con su uso. La dinámica familiar cambia, así como las prioridades a la hora de tener en cuenta las necesidades de los diferentes miembros de la familia. Los hermanos sanos, la pareja, e incluso el cuidador principal, pasa a un segundo plano y el niño afectado es el principal actor de las atenciones. Esto puede derivar en la sensación de culpabilidad, que se trata de compensar intentando otorgar momentos específicos a los hermanos sanos. También pueden verse afectadas las relaciones maritales, debido al cansancio y a la falta de oportunidades para tener momentos en pareja.

Otro aspecto importante que surge tras el análisis de las entrevistas es la sensación de soledad y falta de apoyo. Esta sensación de aislamiento, puede provocarla la misma familiar como medio de protección ante las reacciones de las personas que desconocen la problemática del hijo. La falta de apoyo se percibe desde el sistema de Salud, que se percibe como fragmentado y poco preparado para las necesidades médicas, hospitalarias y sociales que plantea la enfermedad.

Las mayores fuentes de apoyo provienen de miembros de la familia extensa, personas externas a la familia que aceptan la enfermedad del niño y especialmente de otros padres en la misma situación. En la misma línea, la ayuda y apoyo de compañeros del niño, así como de profesores es uno de los recursos que más valoran las familias.

La situación en la que viven genera en los padres y madres una sensación de incertidumbre y desconocimiento sobre el futuro, acompañada de ansiedad acerca de cómo la enfermedad influirá en el desarrollo de sus hijos.

Se experimenta como una de las preocupaciones más importantes la sensación repetida de pérdida cada vez que el niño sufre algún deterioro que, además, está relacionada con la sensación de pérdida de oportunidades laborales, deseos y aficiones, y el miedo a la reacción del hijo ante dichas pérdidas. A pesar de ello, muchos padres y madres reaccionan yendo más allá de los aspectos negativos y centrándose en los aspectos positivos, en la vivencia del presente y en la esperanza de que pueda darse alguna mejora, surja algún tratamiento e incluso una cura.

El cese de la movilidad supone otro momento de crisis al que los familiares tienen que adaptarse. Esta etapa comienza cuando el niño/a comienza a exhibir dificultades a la hora de caminar y termina cuando el niño/a depende completamente de una silla de ruedas. Es en este periodo cuando surgen las dudas acerca de cuándo y cómo comenzar a emplear la silla de ruedas. En este sentido, cuanto antes se introduzca el concepto de silla de ruedas dentro del contexto familiar y, por tanto, cuanto más tiempo transcurra para acostumbrarse a esa idea, es más probable que se dé un mejor ajuste sobre este aspecto.

Otro de los retos que los familiares tienen que afrontar tiene que ver con la etapa de la adolescencia de sus hijos/as. Los conflictos relacionados con la independencia y dependencia propios de esta edad se ven incrementados por la progresión de la enfermedad y por el rol que tiene que desempeñar la familia como cuidadora.

Por último, las últimas fases de la enfermedad suponen uno de los momentos más complicados para las familias. Además de que la presencia de la realidad de la muerte es cada vez más latente, existen una serie de estresores asociados, tales como el agravamiento de la salud del niño, sus dificultades para dormir, complicaciones respiratorias o problemas cada vez mayores de movilidad.

Plumridge, Metcalfe, Coad y Gill (2009) trataron de identificar la comunicación familiar y los estilos de afrontamiento de padres y madres con hijos con diferentes condiciones genéticas, aunque el análisis se centra en las conclusiones, especialmente con 6 niños con distrofia muscular de Duchenne. Mediante el análisis de las entrevistas

semi-estructuradas que se realizaron, los autores observaron que los padres y madres tienen que afrontar en primer lugar con el diagnóstico, que en muchas ocasiones suele ser un proceso lento y dificultoso. Muchos de ellos muestran su malestar en relación al modo en que se les comunica la noticia y del periodo siguiente. A la hora de afrontar la enfermedad de sus hijos, se encuentran con la realidad de que está ligada a una baja esperanza de vida, de que tienen que adaptarse a nuevas formas de cuidarle y tratarle e incluso al uso de silla de ruedas.

En general, los padres perciben escaso apoyo de los profesionales de la salud, ni de los amigos o familia extensa. Además, no sienten que los demás entiendan completamente la enfermedad y sus implicaciones.

Uno de los problemas que tienen que resolver los padres y madres es cómo hablar con sus hijos sobre ciertos temas, especialmente en lo relativo a la enfermedad y sus consecuencias. En este sentido, aunque los padres tienen claro que ellos tienen el papel principal a la hora de hablar sobre la enfermedad de su hijo, en el caso de la distrofia muscular de Duchenne, muestran más reticencias y dan una información más limitada. Cuando hablan con sus hijos, usan términos tales como "piernas débiles" o "músculos debilitados", evitando expresar contenidos relacionados con la naturaleza progresiva de la enfermedad. Las madres son el principal recurso de información, aunque debido al vínculo emocional y el nivel de empatía tan fuerte que crean con su hijo, la comunicación acerca de la enfermedad se ve limitada, ya que les preocupa la manera en la que los niños responderán. Por su parte, los padres, también muestran reticencias sobre dar información a sus hijos. Sin embargo, se sienten menos

involucrados emocionalmente que las madres, lo que les facilita afrontar las dificultades propias de este tipo de situaciones.

La dificultad que los padres y madres tienen a la hora de hablar con sus hijos sobre la enfermedad y sus consecuencias está asociada, a su vez, con el secretismo con el que se lleva la situación. La familia crea un sistema de normas de comunicación implícitas que pauta de qué se puede hablar y con quién. Una consecuencia de esta organización es que los propios padres y madres viven con la constante preocupación por las posibles preguntas de sus hijos.

Las madres tienden a experimentar una ambivalencia provocada por el hecho de que tienen que lidiar con la situación de su hijo y además con el estatus laboral adquirido, lo que en ocasiones les hace sentir culpables. Son las madres las que tienen la mayor carga, lo que a veces les hace que se convierta en su única tarea, dejando en segundo plano su carrera, aspiraciones e incluso necesidades vinculadas a la salud. Estos sentimientos se pueden entremezclar con la sensación de culpabilidad cuando surgen pensamientos de que los cuidados son una carga o de necesidad de descanso. La relación entre madre e hijo se describe como un vínculo muy fuerte ligado a altos niveles de protección y empatía.

Por otra parte, los padres se muestran preocupados de la misma manera acerca del futuro, aunque tienen una actitud diferente sobre todo en relación a las capacidades, actitudes y estado de ánimo de sus hijos, viéndoles más felices y más capaces de afrontar con la situación. En contrapartida a la reacción de las madres, los padres no

están tan pendientes de manera tan constante sobre cómo se están sintiendo o sobre las formas de afrontamiento.

Samson et al. (2009) realizaron una serie de entrevistas a 7 madres y 5 padres de niños con distrofia de Duchenne con el fin de describir sus experiencias relacionadas con la esperanza. Los autores entienden este concepto como la posibilidad de una persona para hacerse cargo de su existencia, teniendo en cuenta las dimensiones cognitivo y conductual. Consideran que es un concepto importante de estudio ya que la ausencia de esperanza está relacionada de manera negativa con el bienestar físico y psicológico. El mantenimiento de sentimientos de esperanza hace que los padres y madres se esfuercen en los cuidados de sus hijos. El análisis de las entrevistas se llevó a cabo atendiendo al paradigma holístico-inductivo, desde una aproximación fenomenológica. Los temas que surgieron a partir del análisis de las entrevistas fueron los siguientes: 1) afrontamiento de la pérdida, 2) aprendiendo a adaptarse y 3) más allá de la pérdida.

En cuanto al primero, los padres y madres del estudio se encontraban en un continuo entre la supresión y negación del sentimiento de tristeza y las conductas claramente observables como consecuencia de la depresión. La sensación de pérdida estaba asociada principalmente a los primeros estadíos de la enfermedad, junto con la sensación de pérdida de expectativas de los padres y madres y sentimientos de inseguridad ante el futuro. Además, muchos de ellos percibían que no tenían recursos suficientes para afrontar la situación y se aferraban a que la situación mejorará o a que la investigación y la medicina facilitarán un remedio o una cura, lo que conlleva cierto

grado de pasividad. Por otra parte, también se observan otros tipos de afrontamiento más activos, tales como la búsqueda de información en Internet, la consulta con médicos especialistas y la búsqueda de apoyo emocional por parte de amigos y familiares.

El segundo de los temas surgidos en el análisis de las entrevistas tiene que ver con la necesidad de aprender a adaptarse a los cambios y nuevos retos asociados a la enfermedad de sus hijos, entre los que se destacan la falta de movilidad, el incremento de la dependencia o el aislamiento. Este proceso de aprendizaje requiere una participación activa y el desarrollo de recursos personales y habilidades que le sirvan de ayuda, por ejemplo, para adaptarse a las demandas físicas y psicológicas del afectado, así como a las nuevas dinámicas familiares. Poco a poco van alcanzando una sensación de normalidad acomodándose a la nueva realidad. Además, lo pequeños logros que van alcanzando tanto ellos mismos como sus hijos provocan sentimientos de logro personal ante los retos diarios. El apoyo social y la búsqueda de información son estrategias de afrontamiento que los familiares perciben como útiles. La adopción de estas estrategias conlleva que la enfermedad pasa de ser vista como una amenaza externa a ser incorporada en sus vidas.

Finalmente, la tercera temática que los autores destacan, hace referencia al concepto de ir más allá de la enfermedad. Este hecho hace referencia a que el foco de la atención de los padres y madres pasa de estar centrado en las consecuencias físicas de la enfermedad a focalizarse en el desarrollo del niño como persona con sus necesidades psicosociales ligadas a su propio desarrollo madurativo.

Hodges y Dibb (2010) emplearon la metodología cualitativa, en concreto el análisis temático inductivo, con el fin de analizar las experiencias de 7 madres y 1 padre con hijos con Duchenne, que participaban en grupos de apoyo familiares. Cada uno de los participantes fue entrevistado individualmente con objeto de valorar sus experiencias como miembros de dichos grupos. Son dos los temas surgidos en este análisis, por un lado la comparación social y por el otro, el apoyo.

En primer lugar, distinguen entre las comparaciones hacia arriba y hacia abajo. El primer tipo es especialmente útil para estas personas ya que les permite compararse a sí mismos con otros que se encuentran en una situación ligeramente mejor y tener acceso a información sobre cómo mejorar la situación. Además, la comparación hacia arriba permite reemplazar pensamientos negativos sobre el futuro por pensamientos más positivos. Por otro lado, el hecho de compararse hacia arriba puede conllevar situaciones de cierta frustración si se percibe que uno mismo no puede llegar a estar en la misma situación que la otra persona.

Por su parte, la comparación hacia abajo hace que las personas se sientan afortunadas con su propia situación y facilita la búsqueda de información para evitar terminar en la situación de la otra persona.

En este estudio, los autores destacan que la comparación hacia abajo es la más utilizada por la muestra estudiada, lo que puede ser explicado por la naturaleza progresiva e incontrolable de la enfermedad de Duchenne. En relación a la comparación social, una de las estrategias que emplean los sujetos de estudio es la evitación de la

comparación, lo que les lleva a reducir el número de contactos o evitar oír o leer testimonios de otras personas, adoptando una estrategia de autoprotección y reducción del dolor.

El segundo de los dos temas surgidos a raíz del análisis de las entrevistas a los padres y madres participantes en los grupos de apoyo, hace referencia al apoyo recibido y aportado a dicho grupo. Para los participantes fue de gran importancia el contacto con otras personas en la misma situación, especialmente en el periodo posterior al diagnóstico. En etapas posteriores sigue siendo necesario el apoyo de otros para ver que los demás se encuentran en situaciones similares y que tienen sentimientos parecidos. La aceptación positiva de la situación facilita que los padres y madres ofrezcan apoyo y ayuda a otros que están empezando a lidiar con la misma situación que ellos tuvieron que afrontar.

Entre los escasos estudios que valoran aspectos psicológicos de la enfermedad de Charcot-Marie-Tooth destaca el llevado a cabo por Beyer y Daino (1991) en el que se analizaron entrevistas realizadas a 22 familias con hijos con esta enfermedad. Las familias describen situaciones en las que se ven limitados al no poder manejar tareas rutinarias o actividades que la mayor parte de las familias pueden afrontar, como por ejemplo el traslado del niño. También se encuentran dificultades en el entorno laboral y en el área social. La falta de información, el futuro de sus hijos y el suyo propio son otro motivo de preocupación de estos padres, así como los gastos a los que tienen que enfrentarse por los cuidados médicos, equipos especiales y los cambios necesarios para adaptarse a la enfermedad. Uno de los mecanismos de compensación que se emplean

consiste en animar a sus hijos a apuntarse a actividades que no requieren de habilidades físicas, tales como actividades intelectuales y artísticas. Esto requiere la aceptación de que ciertas expectativas acerca del futuro de los hijos no se van a poder cumplir.

3.3.2. Estudios cuantitativos

En cuanto a estudios realizados desde la metodología cuantitativa unos de los primeros que se llevaron a cabo fue liderado por Holroyd y Guthrie (1979). En él se compararon el nivel de estrés entre un grupo de padres y madres de 18 niños con enfermedades neuromusculares (12 niños con distrofia muscular de Duchenne y un caso de enfermedad de Werdnig-Hoffman, de atrofia muscular espinal y de hipotonía congénita) con un grupo de padres y madres de 50 niños con problemas psiquiátricos (trastornos del aprendizaje, ansiedad, agresividad y depresión). En ambas muestras, el 75% de los afectados eran niños con una media de edad de 9 años. Aunque los autores subrayan que no existen test específicos para valorar estrés en enfermedades crónicas, emplean un cuestionario utilizado con otros tipos de población como el autismo o el Síndrome de Down: *The Questionnaire on Resources and Stress* (QRS; Holroyd, 1974).

Las familias con algún tipo de enfermedades neuromuscular en uno de sus miembros mostraron mayor carga asociada a la incapacitación física y percibían el futuro como escasamente esperanzador. En cambio, las familias con problemática psiquiátrica experimentaron más problemas en el área relacionada con la integración familiar.

Por otra parte, no se encontraron diferencias en las escalas que evaluaban excesivo tiempo de demandas, sobreprotección, exceso de compromiso y limitación en oportunidades familiares. Las madres cuyos hijos padecen la enfermedad en una fase más avanzada, sienten mayor carga y estrés, así como una mayor deprivación de una vida familiar normal que los padres y madres con menor avance de la enfermedad.

Los mismos autores (Holroyd y Guthrie, 1986) compararon niveles de estrés en 16 padres y madres con hijos con enfermedades neuromusculares (distrofia muscular, n =11; atrofia muscular espinal, n = 3; miositis osificante, n = 1; otros, n = 1), 11 progenitores cuyos hijos padecían enfermedades renales y 16 con fibrosis quística. También se estudió a un grupo control de padres y madres de 32 niños y niñas semejantes en edad.

Como en el estudio anterior, se aplicó el Cuestionario de Recursos y Estrés (QRS, Holroyd, 1974). Los resultados evidenciaron mayores niveles de estrés a nivel significativo en el grupo de enfermedad neuromuscular, en comparación con el grupo control en los siguientes factores del cuestionario: deterioro cognitivo, limitación en oportunidades familiares, estrés por enfermedad terminal, limitaciones físicas y estrés financiero. Sorprendentemente para los autores, no existen diferencias en cuanto al factor de dependencia y manejo, falta de armonía familiar o carga personal. Así mismo, observaron que la extensión y severidad del estrés en el grupo de enfermedades neuromusculares diferían cualitativa y cualitativamente con respecto al resto de grupos estudiados.

Thompson, Zeman, Fanurik y Sirotkin (1992), llevaron a cabo un estudio sobre el estrés parental, métodos de afrontamiento y conflictos familiares con padres de 35 niños con Distrofia muscular de Duchenne. El protocolo incluía una entrevista estructurada centrada en procesos de afrontamiento y una serie de cuestionarios, concretamente: *The Ways of Coping Questionnaire* (Folkman y Lazarus, 1984); *The Family Environment Scale* (FES; Moos y Moos, 1981); *The Symptom Checklist 90-Revised* (SCL-90-R; Derogatis, 1977) and *The Missouri Children´s Behavior Checklist* (MCBC; Sines, Pauker, Sines y Owen, 1969). Entre las conclusiones más importantes destaca la presencia de distress y depresión parental, sobre todo en madres. Además, los altos niveles de estrés parental, el elevado uso de afrontamiento paliativo y un alto nivel de conflictividad familiar estuvieron asociados, en general, con bajos niveles de ajuste tanto en los padres como en sus hijos.

Uno de los mayores estresores a los que se tienen que enfrentar los familiares es el momento del diagnóstico. Muchas familias experimentan sentimientos de pérdida, amenaza, miedo y ansiedad. La negación es común en esta etapa. Las familias pueden negar la existencia, el impacto o la permanencia de la enfermedad y también pueden aceptar el diagnóstico pero negar su permanencia. Varios autores conciben la negación desde el punto de vista positivo, en la medida en la que permite a la persona tolerar una realidad difícil que no puede modificarse (Livneh, 2009).

Solden, Guildea, Antao, Street y Silvert (1999) estudiaron una muestra de 54 padres y madres con hijos con distrofia muscular de Duchenne y la compararon con un grupo control de 53 padres con el objetivo de valorar sus percepciones sobre la conducta

de sus hijos, así como la autoconfianza para afrontar problemas relacionados con la enfermedad. Para ello los participantes cumplimentaron los siguientes cuestionarios: Cuestionario de confianza parental, basado en el cuestionario *Infant Care Self Efficacy Scales* (Froman y Owen, 1989) y *Revised Behaviour Problem Checklist* (Quay y Peterson, 1982).

Los resultados del estudio indican que los problemas de conducta representan un problema significativo para los progenitores de niños con Duchenne. Además, los niños con mayores problemas conductuales tenían mayor probabilidad de experimentar ansiedad y retraimiento en comparación con el grupo control. A su vez mostraron menor probabilidad de mostrar conductas de socialización agresivas. Los autores del estudio observaron una tendencia de los padres con Duchenne a mostrar una falta de confianza en tratar con los problemas psicológicos y de conducta de sus hijos, hecho que a su vez influía en la manera de valorar su conducta.

Reid y Renwick, (2001) llevaron a cabo un estudio para examinar el nivel de estrés experimentado por 10 padres y 25 madres con hijos adolescentes diagnosticados por la enfermedad de Duchenne. Como en anteriores estudios, el cuestionario aplicado fue el *Questionnaire on Resources and Stress* (Holroyd, 1987). En este sentido, observaron que los niveles de estrés eran elevados, teniendo en cuenta los baremos del cuestionario. El estrés no se relacionó con variables sociodemográficas, sino con el ajuste psicosocial del adolescente (déficit en el control de los impulsos, presiones internas y externas) o la calidad en las relaciones familiares.

El estudio de Nereo, Fee y Hinton, (2003) examina el estrés experimentado por 112 madres con niños con Duchenne en comparación con 800 madres con hijos sanos. Para ello aplican los siguientes cuestionarios: *Parenting Stress Index-Short Form* (Abidin, 1995) y *Child Behavior Checklist* (Achenbach, 1991). Analizando los resultados, observan que el nivel de estrés es mayor en las madres con hijos con Duchenne, especialmente relacionado con la interacción y con la conducta de los hijos. Los autores concluyen a partir de estos resultados, que las interacciones con sus hijos y el comportamiento de los mismos son más estresantes que en el grupo normativo. La menor competencia social de los niños es una dificultad particularmente importante para las madres. En este sentido, por una parte, las madres que sufren mayores niveles de estrés, describen la conducta de sus hijos como más problemática y por otra parte, los mayores problemas de conducta se encuentran en los hijos con madres más estresadas.

De esta forma, tanto el estrés materno como la conducta problemática de los hijos se afectan mutuamente, sugiriendo la necesidad de una intervención encaminada a mejorar las interacciones sociales de los niños y la disminución del estrés en sus madres.

El estrés se evaluó longitudinalmente en tres veces en periodos de dos años. En este tiempo, el estrés materno no cambió significativamente. A pesar del deterioro asociado a la enfermedad, las madres fueron capaces de aprender a afrontar y a ajustarse. Los autores sugieren el acceso a servicios de apoyo formal y sistemas de apoyo social informal como forma de ayuda a las madres de cara al logro de un mejor afrontamiento y ajuste a la situación. Como alternativa, proponen como posible

explicación el hecho de que el grupo de madres que han continuado en el seguimiento longitudinal pueden tener unas características que han propiciado un mejor ajuste. Los autores sugieren la necesidad de un mayor número de estudios, con una muestra más amplia.

Las conclusiones del estudio, además de subrayar la influencia de la conducta de los hijos en el estrés materno, también destacan el impacto del funcionamiento cognitivo y de los aspectos prácticos del cuidado.

En cuanto a variables emocionales tales como la depresión y la ansiedad, el estudio de Abi Daoud, Dooley y Gordon (2004), comparó a una muestra de 14 padres y 25 madres con niños con distrofia muscular de Duchenne con un grupo control de padres y madres con hijos sanos. Concluyeron que el grupo con hijos afectados mostraban niveles significativamente mayores en depresión y ansiedad. Además, tenían más probabilidad de acudir a servicios de salud mental y de que los problemas de ansiedad interfiriesen en sus vidas o actividades. Por otra parte, los padres y madres con niños con distrofia de Duchenne mostraron menor nivel de autoestima y autoridad. Los autores encontraron que tener un hijo mayor de 13 años y estar separado influía en las puntuaciones de estrés de los padres y madres. Por último, el hecho de estar divorciado, separado o viudo se asociaba con menor nivel de autoridad.

Chen y Clark (2010), por su parte, evaluaron a 126 padres y madres con hijos con distrofia muscular de Duchenne a fin de detectar las relaciones existentes entre el apoyo familiar, la energía familiar, la severidad de la enfermedad y la percepción del

estado de salud de sus hijos, por una parte, y la influencia en la salud parental. Con este fin, utilizaron una serie de instrumentos: *The Family Apgar* (Smilkstein, 1978), *The Family Hardiness Inde (*McCubbin, Thompson y McCubbin 2001), *The Duke Health Profile* (Parkerson, 2002) *y The Barthel Index* (Mahoney y Barthel, 1965).

Los autores observaron que, consistentemente con otros estudios similares, los padres y madres evaluados reflejan niveles más bajos de salud, así como mayor depresión, ansiedad y dolor que la población general. Por su parte, los cuidadores con mayores niveles de apoyo y fortaleza familiar, alcanzan puntuaciones más elevadas en salud parental. Las percepciones parentales positivas sobre el estado de salud de sus hijos estuvo asociado con un estado de salud general positivo de los padres y madres. En este aspecto, hay que destacar que las madres muestran niveles de salud parental más bajos, probablemente como consecuencia de una mayor carga que los padres.

El nivel educativo y el empleo son variables moderadoras de la salud de los padres y madres. Sin embargo, los ingresos anuales y la severidad de la enfermedad de los hijos no parecen tener tanta influencia en su salud. Otra de las conclusiones de este estudio es que cuanto menor es la edad del niño en el momento el diagnóstico, mayor es la fortaleza familiar. Esto último puede ser explicado por el tiempo adicional a la hora de adaptarse a los efectos de la enfermedad y la facilidad para acceder a la asistencia profesional.

Con respecto a la variable de funcionamiento familiar, los resultados del estudio reflejan una correlación significativa entre ésta y la edad del diagnóstico, la fortaleza

familiar, el estado de salud de los familiares, el apoyo familiar y no así con el nivel de discapacidad, ni con los ingresos familiares o el estado laboral (Chen y Clark, 2007).

Las familias que habían detectado de manera más temprana la enfermedad, y que habían accedido antes a cuidados médicos, se mostraban más motivados, tolerantes y fuertes a la hora de afrontar la enfermedad y de buscar apoyo familiar, lo que podría ayudar a mantener la salud parental asociada al funcionamiento familiar. El grado de discapacidad no estuvo asociado con el nivel de funcionamiento familiar, hecho que los autores atribuyen a que los padres y madres participaban en grupos de apoyo que les ayudaban a adaptarse al progresivo curso de la enfermedad (Chen, 2008).

Por último, los autores sugieren la necesidad de que las instituciones públicas generen recursos de respiro, tales como centros de día o programas de descanso para las familias. Resaltan la importancia de que los padres y madres formen parte del diseño de la planificación de los cuidados, ya que les puede dar sensación de control, lo que reduce sus niveles de estrés.

A la hora de explicar los procesos de afrontamiento, es importante tener en cuenta las diferentes percepciones que pueden tener los progenitores con respecto a sus hijos. Bray, Bundy, Ryan, North y Everett (2010) llevaron a cabo un estudio sobre el grado de acuerdo entre niños con distrofia de Duchenne y sus progenitores a la hora de explicar su nivel de calidad de vida relacionada con la salud y los efectos en el uso de esteroides, la edad o el funcionamiento físico. Para ello, aplicaron el *Pediatric Quality of Life Inventory* (Varni, Burwinkle, Seid y Skarr, 2003) y otras medidas breves de

funcionamiento a 26 madres y 7 padres con niños con Duchenne. Los hallazgos del estudio muestran un nivel de acuerdo entre padres e hijos de moderado a bajo. En general, los padres y madres estiman la calidad de vida relacionada con la salud de sus hijos por debajo de cómo lo hacen los propios afectados.

Baiardini et al. (2011) evaluaron la calidad de vida relacionada con la salud en 21 madres y 6 padres de 27 niños con distrofia muscular de Duchenne a través de dos cuestionarios: *Children Health Questionnaire-Parent Form 50* (Landgraf, Abetz y Ware, 1996) y *Family Strain Questionnaire* (Rossi Ferrairo, Aiardi y Zotti, 2004). Tal y como se esperaba, los niños con Duchenne mostraban mayores limitaciones físicas y problemas en la escuela y en otras actividades de la vida diaria, en comparación con el grupo control. Por su parte, los padres y madres reflejaron sentimientos de nerviosismo y preocupación, mostrándose conscientes de la naturaleza progresiva de la enfermedad. Por otra parte reflejaron el hecho de que sus hijos no sufrían ansiedad o depresión, ni tampoco problemas de conducta como agresividad, impulsividad o hiperactividad.

Un aspecto a destacar para los autores del estudio, fue el hecho de que a peores resultados en la dimensión psicológica relacionada con la calidad de vida de sus hijos, mayor era el impacto emocional de la enfermedad en los progenitores y mayor era la cohesión familiar.

Bray et al. (2011) exploraron la percepción de 30 padres y madres en relación al estado de salud de sus hijos con Duchenne, en comparación con una muestra normativa de 2.620 padres y 90 con Charcot-Marie-Tooth. Mediante el *Child Health*

Questionnaire parent form (Landgraf, Abetz y Ware, 1999) encontraron que el grupo de Duchenne obtenía puntuaciones significativamente más bajas que el grupo control en todos los dominios, particularmente en el funcionamiento físico y en la posibilidad de ir al colegio y para desempeñar roles sociales debido a las limitaciones físicas. Los padres y madres cuyos hijos padecían Duchenne experimentaron un mayor impacto emocional en el momento en el que el niño perdió la capacidad de ambulación, lo que coincide a su vez con una mayor carga para los padres y madres.

Tabla 1. Revisión de los principales estudios cuantitativos y cualitativos sobre afrontamiento en familias con hijos con enfermedades neuromusculares

Autores	Muestra	Tipo de E.N.	Metodología investigación	Instrumentos	Variables objetivo
Morrow y Cohen, 1954	Padres y madres de jóvenes (17-28 años) n= 48	Distrofia muscular	Cualitativa	Entrevista	Estresores Ajuste psicosocial
Solow, 1965	Artículo teórico	Enfermedades neuromusculares			Estresores Afrontamiento
Holroyd y Guthrie, 1979	Padres y madres de 18 niños con E.N. Padres y madres de 50 niños con problemas psiquiátricos	Duchenne, Werdnig-Hoffman, Atrofia muscular espinal, hipotonía congénita Trastornos del aprendizaje, ansiedad, agresividad, depresivos.	Cuantitativa	*Questionnaire on Resources and Stress* (Holroyd, 1974).	Estrés
Bregman, 1980	6 familias	Duchenne Werdnig-Hoffman	Cualitativa	Observación- convivencia con las familias	Afrontamiento
Firth, Gardner-Medwin, Hosking, Wilkinson, 1983	53 familias (padre y /o madre)	Duchenne	Cualitativa	Entrevista	Estresores

Firth, 1983	N= 69	Duchenne	Cualitativa	Entrevista	Experiencia sobre el diagnóstico
Witte, 1985	N = 6	Duchenne	Cualitativa	Entrevista	Impacto Afrontamiento
Holroyd y Guthrie, 1986	Enfermedad neuromuscular (n =16) Fibrosis quística (n =16) Enfermedad renal (n = 11)	Distrofia muscular (n =11), Atrofia muscular espinal (n = 3), Miositis osificante (n = 1), otros (n = 1)	Cuantitativa	*Questionnaire on Resources and Stress* (Holroyd, 1974).	Estrés
Vaughn y Mendell, 1986	Madres (n= 15)	Duchenne	Cualitativa	Entrevista basada en el modelo sobre las fases del duelo de Kübler Ross	Actitudes Adaptación
Buchanan, Labarbera, Roefels y Olson, 1989	Madres (n = 23) Padres (n =2)	Duchenne	Cualitativa	Entrevista	Estresores Afrontamiento
Beyer y Daino, 1991	Padres y madres (n = 22)	Charcot-Marie-Tooth	Cualitativa	Entrevista	Influencia psicosocial y adaptación ante la enfermedad
Gagliardi, 1991	Madres (n = 3) Padres (n =3)	Duchenne	Cualitativa	Enfoque etnográfico-Entrevista-Observación	-Experiencia familiar

Robins, 1991	Artículo teórico	Duchenne	Cualitativa	Basado en la experiencia clínica	Estresores Afrontamiento
Thompson, Zeman, Fanurik y Sirotkin, 1992	Madres (n = 32) Padres (n = 3)	Duchenne	Cuantitativa/ Cualitativa	-*The Ways of Coping Questionnaire* (Folkman y Lazarus, 1984). -*The Family Environment Scale* (FES; Moos y Moos, 1981). - *The Symptom Checklist 90-Revised* (SCL-90-R; Derogatis, 1977). - *The Missouri Children´s Behavior Checklist* (MCBC; Sines, Pauker, Sines y Owen, 1969).	Estresores Afrontamiento
Green y Murton, 1996	Madres (n = 157) Padres (n= 132)	Duchenne	Cuantitativo Cualitativo	-Cuestionario realizado ad hoc	Experiencias y satisfacción sobre el diagnóstico
Solden, Guildea, Antao, Street y Silvert, 1999	Padres con hijos con Duchenne (n = 54) Padres con hijos sanos (n = 53)	Duchenne	Cuantitativo	- *Infant Care Self Efficacy Scales* (Froman y Owen, 1989). - *Revised Behaviour Problem Checklist* (Quay y Peterson, 1982).	-Percepción conducta hijos -Confianza parental en resolver problemas
Reid y Renwick, 2001	Madres (n = 25)	Duchenne (12-19 años)	Cuantitativo	-*Questionnaire on Resources and*	-Ajuste psicosocial de

	Padres (n = 10)			*Stress* (Holroyd, 1974).	adolescentes. -Estrés familiar
Bothwell, Dooley, Gordon, Macauley, Camfield y MacSween, 2002	Familias (n = 31)	Duchenne	Cuantitativo	-Cuestionario	-Áreas de importancia par a las familias. -Calidad de vida -Opinión sobre servicios
Abi Daoud, Dooley y Gordon, 2004	Padres y madres (n=42)	Duchenne	Cuantitativo	-Depression and Distress scales (National Population Health Survey)	-Depresión y ansiedad
Nereo, Fee y Hinton, 2003	Madres con DMD (n= 112) Madres hijos sanos (n= 800)	Duchenne	Cuantitativo	- *Parenting Stress Index-Short Form* (Abidin, 1995). - *Child Behavior Checklist* (Achenbach, 1991).	- Estresores
Webb, 2005	Madres (n= 13) Padres (n= 8)	Duchenne	Cualitativo	-Entrevista semiestructurada (Teoría fundamentada)	-Afrontamiento
Chen y Clark, 2007	Madres (n = 72) Padres (n = 54)	Duchenne	Cuantitativo	-*The Family Apgar* (Smilkstein, 1978)- - *The Family Hardiness Inde* (McCubbin, Thompson y McCubbin	-Funcionamiento familiar

				2001). -*The Duke Health Profile* (Parkerson, 2002). -*The Barthel Index* (Mahoney y Barthel, 1965).	
Mah, Thannhauser, McNeil y Dewey, 2008	Madres (n=15) Padres (n= 4)	3 Duchenne, 5 Atrofia muscular espinal, 7 otras	Cualitativo	-Entrevista semiestructurada (Enfoque fenomenológico). NVivo7.0	-Experiencia parental
Smith, 2008	Madres (n= 6) Padres (n= 1)	Enfermedades degenerativas neuromusculares	Cualitativo	Análisis temático	-Experiencias -Necesidades
Samson, Tomiak, Dimillo, Lavigne, Miles, Choquette, Chakraborty y Jacob, 2009	Madres (n=7) Padres (n= 5)	Duchenne	Cualitativo	Entrevista semiestructurada (Enfoque fenomenológico)	-Percepción de esperanza
Plumridge, Metcalfe, Coad y Gill, 2010	Madres (n = 34) Padres (n= 18)	6 Duchenne, 4 fibrosis quística, 6 poliposis adenomatosa, 6	Cualitativo	-Entrevista semiestructurada (Teoría fundamentada)	-Afrontamiento -Salud

		hemoglobinopatías, 7 Huntington y 4 neurofibromatosis			
Chen y Clark, 2010	Madres (n= 72) Padres (n= 54)	Duchenne	Cuantitativo	-*The Family Apgar* (Smilkstein, 1978) - *The Family Hardiness Inde* (McCubbin, Thompson y McCubbin 2001). - *The Duke Health Profile* (Parkerson, 2002). -*The Barthel Index* (Mahoney y Barthel, 1965).	-Salud parental
Bray, Bundy, Ryan, North y Everett, 2010	Madres (n= 16) Padres (n= 7)	Duchenne	Cuantitativo	-*Pediatric Quality of Life Inventory* (Varni, Burwinkle, Seid, Skarr, 2003)	-Calidad de vida relacionada con la salud
Hodges y Dibb, 2010	Madres (n= 7) Padres (n= 1)	Duchenne	Cualitativo	-Análisis temático	Experiencia de los padres y madres como participantes en grupos de apoyo
Baiardini, Minetti,	Madres (n=21)	Duchenne	Cuantitativo	-*Children Health Questionnaire-Parent*	-Calidad de vida

Bonifacino, Porcu, Klersy, Petralia, Balestracci, Tarchino, Parodi, Walter y Braido, 2011	Padres (n= 6)			*Form 50* (Landgraf, Abetz y Ware, 1996). -*Family Strain Questionnaire* (Rossi Ferrairo, Aiardi y Zotti, 2004).	relacionada con la salud
Bray, Bundy, Ryan, North y Burns, 2011	Duchenne (n= 34) Charcot-Marie-Tooth (n= 90) Muestra control (2.620)	Duchenne Charcot-Marie-Tooth	Cuantitativo	*Children Health Questionnaire- Parent Form 50* (Landgraf, Abetz y Ware, 1999)	Percepción parental del estado de salud

Parte 2.

Investigación empírica

Capítulo 4

Metodología

4.1. Introducción

En este capítulo se tratarán los aspectos metodológicos de este estudio cuyo objetivo es analizar las estrategias de afrontamiento utilizadas por un grupo de 50 padres y madres de niños y niñas con enfermedades neuromusculares. Dichas estrategias surgirán a partir del análisis de las entrevistas individuales que se hicieron a dichos familiares. Este capítulo también tratará de describir los objetivos generales y específicos del estudio, así como las características de la muestra. Además, se profundizará en el proceso llevado a cabo para la recogida de los datos, ahondando en las características de la entrevista que se realizó con cada uno de los familiares. El último apartado del capítulo tratará de detallar los pasos dados para analizar las respuestas desde la metodología cualitativa, así como del análisis final de los datos obtenidos.

4.2. Objetivos

4.2.1. Objetivo general:

- Analizar las estrategias de afrontamiento del estrés utilizadas por padres y madres de niños con enfermedades neuromusculares.

4.2.2. Objetivos específicos:

Los objetivos específicos de esta tesis son los siguientes:

- Analizar posibles diferencias el afrontamiento del estrés teniendo en cuenta la esperanza de vida de los hijos de los padres y madres entrevistados/as.

- Analizar posibles diferencias en el afrontamiento del estrés, teniendo en cuenta el género de los padres y madres entrevistados/as.

- Analizar posibles diferencias en el afrontamiento del estrés, teniendo en cuenta la edad de los padres y madres entrevistados/as.

- Analizar posibles diferencias en el afrontamiento del estrés, teniendo en cuenta los años transcurridos desde el diagnóstico.

- Analizar las estrategias de afrontamiento del estrés considerando el eje temporal momento del diagnóstico-presente-futuro, así como la relación de pareja.

4.3. Preguntas de investigación:

Atendiendo a los objetivos anteriormente expuestos, se plantean las siguientes preguntas de investigación:

Pregunta de investigación 1: ¿Cuál es la vivencia del familiar en relación al presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Pregunta de investigación 2: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al momento del diagnóstico según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Pregunta de investigación 3: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación a la pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Pregunta de investigación 4: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Pregunta de investigación 5: ¿Es diferente el uso de estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados de manera combinada?

Pregunta de investigación 6: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores?

Pregunta de investigación 7: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta la esperanza de vida de los afectados?

Pregunta de investigación 8: ¿Afectan a las estrategias de afrontamiento la edad de los progenitores y la duración de la enfermedad?

4.4. Hipótesis

De acuerdo a la revisión teórica y a las preguntas de investigación propuestas en el apartado anterior, se plantean las siguientes hipótesis:

1. Según el género de los familiares:

    1.1. Las madres entrevistadas utilizarán más que los hombres las estrategias de afrontamiento basadas en la emoción que las estrategias de afrontamiento centradas en el problema.

    1.2. Las madres entrevistados/as experimentarán mayor nivel de distress que los padres.

2. Según la esperanza de vida asociada a la enfermedad:

    2.1. Los padres y madres entrevistados/as cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida menor, emplearán en mayor medida estrategias de afrontamiento basadas en la emoción que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una enfermedad no asociada a muerte prematura.

    2.2. Los padres y madres entrevistados/as cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida menor, experimentarán un mayor nivel de distress que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una enfermedad no asociada a muerte prematura.

3. Según el tiempo transcurrido desde el diagnóstico:

    3.1. Cuanto más tiempo ha transcurrido desde el diagnóstico hasta la realización de la entrevista, menor nivel de distress.

4.5. Justificación de la metodología cualitativa

Tanto la metodología cuantitativa como la metodología cualitativa comparten una serie de características: ambas conllevan una reducción y organización de los datos, tienden a dar respuesta a preguntas generadas por la investigación y los datos analizados se contrastan con la literatura científica existente (Hardy & Bryman, 2004).

El enfoque cualitativo lleva a cabo registros narrativos de los fenómenos que son estudiados mediante técnicas como la observación participante y las entrevistas no estructuradas, dentro de entornos lo menos controlados posibles. La investigación cualitativa trata de identificar la naturaleza de las realidades, su sistema de relaciones y su estructura dinámica. Este enfoque es el que mejor encaja con el presente estudio, ya que permite expresar las experiencias de colectivos pequeños, como el representado por padres y madres con niños con enfermedades neuromusculares (Morrow, 2003). Además, permite estudiar las experiencias de personas que comparten la misma situación (Van Manen, 1990; Creswell, 2007).

El objeto de estudio de esta tesis son las estrategias de afrontamiento. Estas pueden resultar positivas o negativas según la persona y el contexto, pero no pueden

considerarse mejores o peores *per se* (Lazarus, 1993). Este autor sugiere que las estrategias de afrontamiento únicamente se pueden describir y no evaluar o comparar con baremos.

La evaluación del afrontamiento es una tarea difícil de llevar a cabo ya que conlleva analizar procesos subjetivos, que varían entre diferentes individuos y dentro de un mismo individuo. Los cuestionarios existentes, como por ejemplo el *Ways of Coping Scale* (Folkman y Lazarus, 1988), parten de un enfoque estructurado y utilizan un listado de potenciales conductas de afrontamiento. Muestran una estructura de base inestable debido a las diferencias en la población y de los estresores observadas a lo largo de los estudios llevados a cabo. En este sentido, aunque el cuestionario divide el afrontamiento en dos categorías: centradas en la emoción y centradas en el problema, en la práctica esta distinción a menudo no queda clara (p.e. "hablar con alguien" puede conllevar la búsqueda de consejo, búsqueda de apoyo emocional o instrumental).

Otro aspecto que no tienen en cuenta este tipo de cuestionarios es que el afrontamiento cambia a lo largo del tiempo, ya que se centran en un momento vital concreto o teniendo en cuenta el último mes, mientras que una entrevista semi-estructurada permite que los participantes expresen sus métodos de afrontamiento a lo largo de un periodo de tiempo más largo, permitiendo el desarrollo de diferentes estrategias (Stone, Kenneddy-Moore, Newman, Greenberg y Neale, 1992).

Folkman y Moskowitz (2004) subrayan que el enfoque narrativo es una interesante alternativa a los enfoques que utilizan cuestionarios: facilita la expresión de eventos estresantes, las emociones experimentadas, así como lo que pensaron e hicieron

en la situación. Otra de las ventajas que Folkman y Moskowitz destacan con respecto al modelo narrativo es su capacidad de incluir mayor número de estrategias que los inventarios o incluso estrategias que no contempladas en estos.

El uso de la entrevista como medio para la recogida de datos supone un marco más adecuado para que la persona exprese espontáneamente sus recursos de afrontamiento, evitando que tenga que ceñirse a un guión marcado por un cuestionario.

Por otra parte, el enfoque semi-estructurado que caracteriza a las entrevistas, estimula que las personas expresen de una manera más natural las estrategias de afrontamiento que llevan a cabo. Además, el uso de entrevista permite abarcar un periodo largo de afrontamiento que el enfoque cuantitativo no permitiría (p.e. cuestionarios que se basan en el tipo de afrontamiento del último mes). Como se ha resaltado anteriormente, hay que tener en cuenta que el afrontamiento es un proceso dinámico que varía a través del tiempo y de acuerdo a el contexto en el ocurre (Lazarus, 1993).

4.6. Aproximación metodológica cualitativa: fenomenología y análisis temático deductivo

Este estudio se basa en el análisis de los datos de entrevistas realizadas a padres y madres de niños/as con enfermedades neuromusculares, desde la metodología cualitativa. Partiendo del enfoque fenomenológico, se aplica el análisis temático como estrategia de análisis de los datos (Boyatzis, 1998; Braun y Clarke, 2006; Husserl, 1913; Giorgi y Giorgi, 2009). Este tipo de análisis, ha sido empleado en diferentes

investigaciones para evaluar las experiencias, necesidades y estrategias de afrontamiento en personas con enfermedades crónicas o sus familiares (Ahlström y Sjodén, 1994; Mah, Thannhauser, McNeil y Dewey, 2008; Smith, 2008; Samson et al., 2009 y Hodges y Dibb, 2010).

La fenomenología busca clarificar situaciones de la vida diaria, a través del análisis cualitativo de descripciones de experiencias. Permite explicar la esencia de las experiencias a partir de la información que aportan las personas sujeto de estudio.

Se diferencia de otras teorías, como la Teoría Fundamentada (Grounded Theory) cuyo objetivo se basa en descubrir teorías, conceptos, hipótesis y proposiciones partiendo directamente de los datos, y no de supuestos a priori, de otras investigaciones o de marcos teóricos existentes (Strauss y Corbin, 1998; Glaser, 1992; Charmaz, 2003). La Teoría Fundamentada se utiliza para desarrollar una nueva teoría cuando la existente no explica el fenómeno (Creswell, 2007). Por lo tanto, esta aproximación es más apropiada cuando se pretenden generar nuevas teorías de un fenómeno particular partiendo directamente de los datos, más que de los supuestos a priori de otras investigaciones. El nivel final en el proceso de desarrollo de la teoría es la construcción de unas categorías centrales, como base de la teoría emergente.

Otros enfoques cualitativos como el enfoque narrativo y el estudio de caso se basan en el análisis de uno o pocos participantes. Por ejemplo, el estudio de caso es un examen intensivo de una entidad individual. Esta técnica permite la recopilación e interpretación detallada de toda la información posible sobre un individuo (Yin, 1994).

El enfoque fenomenológico, por su parte, busca capturar la manera en la que los fenómenos se experimentan dentro del contexto en el que las experiencias tienen lugar. En este tipo de enfoque se recoge información para su posterior análisis, a partir de descripciones verbales o escritas de las propias personas analizadas, de las descripciones que estas personas hacen de otras o mediante la grabación de conductas.

De cara a estructurar el significado del texto a estudiar, la aproximación más útil es emplear unidades de significado, estructuras de significado o temas (Van Manen, 1990). El análisis temático es el método empleado para identificar, analizar y comunicar temáticas relacionadas con el afrontamiento.

Debido a que objetivo de la presente tesis se centra en analizar estrategias de afrontamiento empleadas por parte de padres y madres con niños y niñas afectados/as por enfermedades neuromusculares, el análisis temático permite transformar los resultados obtenidos a partir de las entrevistas realizadas con dichos familiares, en datos cuantitativos, y codificarlos (Boyatzis, 1998; Braun y Clarke, 2006). Dicha codificación requiere un código explícito de referencia que puede reflejarse en un listado de temas, en un complejo modelo o en indicadores. Un tema se considera como un modelo que, como mínimo describe y organiza la información analizada y como máximo interpreta aspectos del fenómeno.

El análisis temático se puede llevar a cabo a través de dos niveles de profundización: nivel manifiesto o explícito y nivel latente o interpretativo. En el primer nivel, el explícito, el enfoque se basa en la observación visible de la información,

mientras que en el nivel implícito, el análisis se centra en las ideas y asunciones subyacentes contenidas en la información.

Por su parte, los temas pueden ser generados de dos maneras, inductiva y deductivamente. La primera forma hace alusión a la generación inductiva de temáticas a partir de todos los datos. En este caso, el proceso de codificación no trata de encajar los datos en un marco preexistente. Por otro lado, la generación deductiva o el análisis temático teórico conlleva que los temas se generan a partir de teorías o investigación previas (Patton, 2002). Aunque se pierde una descripción de los datos en general, se obtiene un análisis más detallado sobre ciertos aspectos concretos que puedan resultar de interés (Braun y Clarke, 2006).

Esta tesis, está centrada en el análisis de estrategias de afrontamiento ante un estresor relacionado con problemas de salud. Este área de estudio ha recibido un elevado grado de atención en la literatura científica, lo que ha derivado en el desarrollo de teorías sobre el afrontamiento y en la identificación de una amplia gama de estrategias de afrontamiento. Es por ello que, en esta tesis, se ha optado por el análisis temático deductivo, siguiendo el modelo utilizado por Ahlström y Sjöden (1994) con pacientes con enfermedades neuromusculares o por Sullivan, Mikail y Weinshenker (1997) con personas diagnosticadas de esclerosis múltiple.

Este tipo de análisis parte de los modelos y categorizaciones sobre las estrategias de afrontamiento, que se pueden encontrar en la literatura científica y que han sido referencia en multitud de estudios y publicaciones (Weisman, 1972; Folkman,

Lazarus, Dunkel-Schetter, DeLongis y Gruen, 1986; Greer y Watson, 1987; Folkman y Lazarus, 1988; Carver et al., 1989; Frank- Stromborg, 1989; Fernández-Abascal, 1997).

4.7. Muestra

El tipo de muestreo fue de conveniencia debido al reducido número de población con enfermedades neuromusculares, tal y como se ha reflejado en el capítulo de epidemiología. En este sentido, hay que tener en cuenta dos datos relevantes: por un lado, que la prevalencia de las enfermedades neuromusculares es de 1 de cada 3.500 niños y jóvenes (Emery, 1991) y por el otro que en Bizkaia hay aproximadamente 186.500 niños y niñas de edades comprendidas entre 0 y 18 años (INE, 2007). Considerando que en Bizkaia, la muestra estudiada fue de 34 padres y/o madres de 19 niños/as afectados/as, esta última cifra supone el 35% de la población de niños/as afectados por enfermedades neuromusculares en dicha provincia.

En la misma línea, si partimos de la población de menores de 18 años del País Vasco (INE, 2007), la población de familias con niños/as afectados/as con enfermedades neuromusculares estudiados/as ronda el 23% y en Asturias el 15%.

Los criterios de inclusión para la elección de los participantes fueron los siguientes: tener un hijo/a menor de 18 años con algún tipo de enfermedad neuromuscular diagnosticada y confirmada por un especialista (CIE-10), pertenecer a alguna de las asociaciones de enfermedades neuromusculares de España, ausencia de psicopatología severa (DSM-IV-TR, American Psychiatric Association, 2000) y firma del consentimiento informado. Los criterios de inclusión establecieron que los sujetos

participantes no padecieran enfermedades psiquiátricas severas como esquizofrenia u otros trastornos psicóticos, demencia, retraso mental, algún tipo de trastorno que les impidiese comunicarse a través del habla.

Finalmente, el grupo de participantes (n = 50), estuvo compuesto por 23 padres y 27 madres procedentes de la Asociación de Enfermos Neuromusculares de Bizkaia, de Álava y del Principado de Asturias (tabla 2). La característica común de todos los participantes fue el hecho de tener un hijo o hija con enfermedad neuromuscular, concretamente los siguientes trastornos: distrofia muscular de Duchenne (n= 28), distrofia muscular de Becker (n= 2), miopatía congénita (n= 7), miastenia (n= 2), Charcot Marie Tooth (n= 2), Pelizaeus Merzbacher (n= 2), atrofia muscular espinal (n= 2) y miopatía mitocondrial (n= 1), distrofia muscular congénita (n= 4).

La muestra fue homogénea ya que todos los participantes compartían la característica de tener un hijo o hija con enfermedad neuromuscular. Dentro de este grupo, existen particularidades que hay que tener en cuenta, tales como las diferencias de género, la presencia de enfermedad asociada a muerte prematura, como en la distrofia muscular de Duchenne y en la enfermedad de Pelizaeus Merzbacher o los años transcurridos desde que se realizó el diagnóstico. Estas variables serán tenidas en cuenta tanto en el capítulo de resultados como en la discusión.

Tabla 2. Características sociodemográficos de los padres y madres

Nº	Género progenitor	Edad progenitor	Años escolarización	Enfermedad afectado	Edad hijo/a afectado	Años desde diagnóstico	Procedencia
1	Masculino	49	10	Duchenne	16	15	Bizkaia
2	Femenino	44	16	Duchenne	16	15	Bizkaia
3	Femenino	43	10	Miopatía nemalítica	17	16	Bizkaia
4	Masculino	47	15	Miastenia	14	13	Bizkaia
5	Femenino	43	17	Miastenia	14	13	Bizkaia
6	Femenino	53	14	Charcot Marie-Tooth	13	6	Bizkaia
7	Masculino	26	16	Duchenne	3	3	Bizkaia
8	Femenino	31	16	Duchenne	3	3	Bizkaia
9	Masculino	42	14	Duchenne	13	8	Bizkaia
10	Femenino	43	10	Duchenne	13	8	Bizkaia
11	Masculino	44	16	Duchenne	14	11	Bizkaia
12	Femenino	43	14	Duchenne	14	11	Bizkaia
13	Masculino	44	18	Duchenne	10	9	Bizkaia
14	Femenino	45	15	Duchenne	10	9	Bizkaia
15	Masculino	39	14	Pelizaeus Merzbacher	17	10	Bizkaia
16	Femenino	42	14	Pelizaeus Merzbacher	17	10	Bizkaia
17	Masculino	48	19	Duchenne	7	4	Bizkaia
18	Femenino	43	10	Duchenne	7	4	Bizkaia
19	Masculino	37	16	Duchenne	7	4	Bizkaia
20	Femenino	37	16	Duchenne	7	4	Bizkaia
21	Masculino	39	16	Duchenne	4	2	Bizkaia
22	Femenino	37	19	Duchenne	4	2	Bizkaia
23	Masculino	50	19	Duchenne	11	6	Bizkaia
24	Femenino	47	15	Duchenne	11	6	Bizkaia
25	Masculino	41	16	Atrofia Muscular Espinal	10	9	Bizkaia
26	Femenino	40	16	Atrofia Muscular Espinal	10	9	Bizkaia
27	Masculino	42	16	Duchenne	5	1	Bizkaia
28	Femenino	45	17	Duchenne	5	1	Bizkaia
29	Masculino	38	19	Duchenne	7	2	Bizkaia
30	Femenino	36	19	Duchenne	7	2	Bizkaia
31	Masculino	39	16	Duchenne	17	15	Bizkaia
32	Femenino	37	10	Duchenne	17	15	Bizkaia
33	Masculino	42	17	Miopatía	9	9	Bizkaia
34	Femenino	41	17	Miopatía	9	9	Bizkaia
35	Masculino	35	10	Miopatía congenita multiminicores	7	2	Vitoria
36	Femenino	31	15	Miopatía congenita multiminicores	7	2	Vitoria
37	Masculino	51	16	Distrofia Muscular Becker	9	6	Vitoria
38	Femenino	43	19	Distrofia Muscular Becker	9	6	Vitoria
39	Femenino	37	19	Miopatía Congénita	7	6	Vitoria
40	Femenino	37	16	Enfermedad Mitocondrial	8	1	Asturias
41	Masculino	43	10	Distrofia muscular congénita merosin negativo	8	6	Asturias
42	Femenino	36	10	Distrofia muscular congénita merosin negativo	8	6	Asturias
43	Masculino	41	15	Duchenne	10	7	Asturias
44	Femenino	39	15	Duchenne	10	7	Asturias
45	Masculino	48	10	Miopatía congénita	4	5	Asturias
46	Femenino	35	16	Miopatía congénita	4	5	Asturias
47	Masculino	42	10	Distr. musc. déficit merosina	8	8	Asturias
48	Femenino	39	10	Distr. Musc. déficit merosina	8	8	Asturias
49	Masculino	39	10	Duchenne	5	5	Asturias
50	Femenino	34	15	Duchenne	5	5	Asturias

La edad media de la muestra de familiares fue de 40,9 años (D.T. = 5,3). Con respecto al género, la media de edad en los hombres fue de 42 años (D.T. = 5,3) y la de las mujeres de 40 (D.T. = 4,9).

En relación al nivel de estudios, las personas participantes contaba con una media de estudios de 14,7 años (D.T. = 3), reflejando que la mayoría contaba con estudios medios (tabla 3).

Tabla 3. Frecuencias y porcentajes de los años de escolarización de la muestra

Años Escolarización	Frecuencia	Porcentaje
10	12	24,0
14	6	12,0
15	7	14,0
16	13	26,0
17	4	8,0
18	1	2,0
19	7	14,0

En cuanto a la ocupación, 36 personas estaban empleadas, 3 jubiladas, 1 estaba incapacitada por enfermedad y 10 eran amas de casa, estas últimas todas eran mujeres.

Del total de la muestra, 34 personas residían en Bizkaia, 5 en Álava y 11 en Asturias. La lengua materna de todos ellos fue la castellana, a excepción de una persona cuya lengua materna era la inglesa, aunque era capaz de expresar sus ideas y sentimientos en castellano.

La media de tiempo transcurrido entre el conocimiento del diagnóstico y la fecha en la que se hicieron las entrevistas fue de 6,8 (D.T = 4,4), siendo el tiempo mínimo de 1 año y el máximo de 16 años.

4.8. Variables:

4.8.1. Variables sociodemográficas

1. Edad del padre o madre en el momento de realizarse la entrevista.

2. Edad del hijo o hija afectado/a por una enfermedad neuromuscular en el momento de realizarse la entrevista.

3. Género del padre o madre entrevistado/a.

4. Nivel educativo: se utilizaron los siguientes baremos: (0-3 años: iletrado; 4 años: sabe leer y escribir, cálculo elemental; 5-7 años: estudios primarios: 8-12: estudios medios; 13 o más: estudios superiores o diplomatura).

5. Profesión/ocupación: actividad laboral desempeñada dentro de la sociedad. Hace referencia tanto a trabajos remunerados, como a no remunerados (p.e. ama de casa). Incluye también diferentes estados tales como la invalidez, bajas o jubilación.

6. Confirmación de diagnóstico: se refiere a que el diagnóstico está confirmado por un médico especialista, atendiendo a criterios diagnósticos de la CIE 10 (Organización Mundial de la Salud, 1992) y/o a pruebas genéticas llevadas a cabo.

7. Año de diagnóstico: fecha en la que se confirmó el diagnóstico.

4.8.2. Variables relacionadas con el estrés y las reacciones emocionales:

A continuación se detallan los estresores y las reacciones emocionales de los familiares, que sirvieron como guía para el análisis temático. Aunque el principal objetivo de esta tesis es el análisis de las estrategias de afrontamiento, se han considerado tanto al estrés y a las reacciones emocionales como parte interrelacionada del proceso de afrontamiento. De esta manera, los tres conceptos, estrés, emoción y afrontamiento se han entendido como una unidad conceptual aunque se analicen de forma separada (Lazarus, 1999).

Estresores personales:

1. Excesivo tiempo de demandas: supone ser el principal cuidador y no poder salir fuera para realizar tareas para uno mismo, como tener oportunidad de realizar actividades fuera, como trabajar, visitar amigos o tener tiempo para uno mismo (Holroyd, 1974).

2. Actitud negativa hacia *index case*: preocupación por lo que pueda pensar la gente del niño y del familiar (Holroyd, 1974).

3. Sobreprotección-Dependencia emocional en la que el familiar cree que el paciente es demasiado dependiente y sobreprotegido (Holroyd, 1974).

4. Falta de apoyo social emocional: falta de apoyo de amistades y de acuerdos con la familia con respecto a los cuidados (Holroyd, 1974).

5. Falta de apoyo social problema: escasez de recursos sociales organizados (Holroyd, 1974).

6. Falta apoyo profesional: escasez de recursos profesionales organizados (Holroyd, 1974).

7. Exceso de compromisos: refleja la absorción del familiar con respecto al afectado, como si el familiar creyera que solo él puede curar a su hijo enfermo (Holroyd, 1974).

8. Pesimismo: expectativa de que la condición del afectado irá a peor, de que habrá más cargas en el futuro y de que la hospitalización puede llegar a ser una realidad a medio plazo (Holroyd, 1974).

Estresores familiares:

1. Falta de integración familiar: problemas emocionales entre los miembros de la familia como el rechazo o la eclusión del afectado en actividades familiares. Refleja falta de apoyo intrafamiliar, desarmonía familiar e incapacidad para integrar al afectado en las funciones sistema familiar (Holroyd, 1974).

2. Limitaciones en oportunidades familiares: renuncia a oportunidades laborales, educativas, sociales y de desarrollo personal (Holroyd, 1974).

3. Incapacitación física: este tipo de estresor refleja las limitaciones físicas asociadas a la enfermedad y sus consecuencias. Limitaciones en habilidades como comer, ir al baño, andar, uso de ayudas. Conlleva que los padres y madres desempeñen un papel importante como cuidadores (Holroyd, 1974).

4. Falta de actividades de los afectados: éstos no tienen suficientes cosas para mantenerse ocupados y entretenidos (Holroyd, 1974).

5. Limitaciones educativas/laborales: referencia a las oportunidades educativas actuales y a las laborales futuras (Holroyd, 1974).

6. Conductas sociales inapropiadas: presencia de conductas sociales inapropiadas y sensibilidad del familiar a la opinión de la comunidad (Holroyd, 1974).

7. Características difíciles de la personalidad: problemas de conducta y de personalidad. Síntomas psiquiátricos del paciente (ansiedad, depresión, impulsividad) o daño cognitivo (Holroyd, 1974).

Reacciones emocionales

1. Ansiedad: puede definirse como una anticipación de un daño o desgracia futuros, acompañada de un sentimiento de disforia desagradable y/o síntomas somáticos de tensión. Supone una preocupación excesiva sobre una amplia gama de acontecimientos actividades (como el rendimiento laboral o escolar), que al individuo le resulta difícil controlar. Puede acompañarse de los siguientes síntomas: inquietud o impaciencia, fatigabilidad fácil, dificultad para concentrarse o tener la mente en blanco, irritabilidad, tensión muscular o alteraciones del sueño (American Psychiatric Association, 2000).

2. Depresión: esta reacción, comúnmente observada en personas con discapacidad y sus familiares, refleja sentimientos de desesperación, indefensión, desesperanza, soledad (Livneh y Antonak, 2005). Según el DSM IV-TR (American Psychiatric Association, 2000) puede englobar los siguientes síntomas: tristeza patológica, decaimiento, irritabilidad, sensación subjetiva de malestar o impotencia, disminución acusada del interés o de la capacidad para el placer en todas o casi todas las actividades, pérdida importante de peso sin hacer régimen o aumento de peso o pérdida o aumento del apetito casi cada día, insomnio o hipersomnia, agitación o enlentecimiento psicomotores, fatiga o

pérdida de energía, sentimientos de inutilidad o de culpa excesivos o inapropiados, disminución de la capacidad para pensar o concentrarse, o indecisión o pensamientos recurrentes de muerte o una tentativa de suicidio.

Variables afrontamiento del estrés

Tal y como se ha mencionado en apartados anteriores, la presente tesis se centra en el análisis temático de tipo deductivo, basada en la teoría previa y desde el punto de vista manifiesto. La selección de los códigos o temáticas que fueron usadas como base para el análisis cualitativo se realizó a partir de una revisión de los principales estrategias de afrontamiento descritas por Weisman (1972), Folkman, Lazarus, Dunkel-Schetter, DeLongis y Gruen (1986), Greer y Watson (1987), Folkman y Lazarus (1988), Carver et al. (1989), Frank- Stromborg (1989) y Fernández-Abascal (1997).

Las estrategias de afrontamiento que finalmente se consideraron para servir de guía al análisis cualitativo se seleccionaron siguiendo los siguientes criterios: a) estrategias previamente utilizadas en estudios cualitativos y b) estrategias que forman parte de protocolos de evaluación de afrontamiento. Dichas estrategias de afrontamiento se describen a continuación a nivel operacional:

1. Evaluación positiva: la evaluación positiva es una estrategia de afrontamiento que incluye focalizar la atención en los aspectos positivos, beneficios o interpretaciones positivas de situaciones negativas. Dentro de esta categoría, diferentes investigadores han empleado varios términos como logro de beneficios frente a la adversidad, reinterpretación positiva o crecimiento post-

traumático (Tennen & Affleck, 2002). Esta estrategia de afrontamiento activo está enfocada a crear un nuevo significado de la situación problema, intentando salvar todo lo positivo que tenga la situación y tratando de identificar beneficios a partir de la adversidad. La persona es consciente de las consecuencias de la enfermedad y se adapta a la situación. Se da cuenta de que no va estar bien y no hace comparaciones con personas sanas. Los valores materiales se vuelven menos importantes. La atención está dirigida en los aspectos no afectados por la enfermedad, las relaciones con los otros, la experiencia con la naturaleza, en el desarrollo personal y en vivir consigo mismo. La persona aprecia lo que puede hacer y experimenta la vida con mayor intensidad (Folkman, Lazarus, Dunkel-Schetter, DeLongis y Gruen, 1986; Carver et al., 1989; Fernández-Abascal, 1997; Folkman y Moskowitz, 2000).

2. Desarrollo personal: esta estrategia, vinculada en cierta manera a la anterior, permite la consideración del problema de una manera relativa de auto-estímulo y de un positivo aprendizaje de la situación, centrándose sobre todo en el desarrollo personal (Fernández-Abascal, 1997). Se considera el crecimiento relacionado con el estrés a los cambios positivos que ocurren como consecuencia de la situación estresante. Incluye cambios en la percepción sobre uno mismo, cambios en las relaciones con los otros y, por último, cambios en la filosofía vital (Calhoun y Tedeschi, 2004).

3. Autocontrol: engloba a los esfuerzos para controlar los propios sentimientos y respuestas emocionales (Folkman et al., 1986). Hace referencia a la capacidad para superar o resistir impulsos o tentaciones, especialmente para actuar de

acuerdo con ideas, valores y expectativas sociales (Baumeister, 2012). El autocontrol se considera como un recurso finito de energía que se emplea cuando hay que llevar a cabo conductas que requieren inhibir una respuesta (Baumeister, Vohs y Tie, 2007; Hagger, 2010).

4. Búsqueda y planificación de soluciones: esta estrategia de afrontamiento centrada en el problema descrita por Lazarus y Folkman (1984) hace referencia a los esfuerzos dirigidos a la resolución o manejo del problema causante del estrés, incluyendo estrategias como la búsqueda de información, toma de decisiones, planificación, resolución de conflictos, esfuerzos por adquirir habilidades, acciones instrumentales y orientadas a la tarea. Incluye la movilización de estrategias de afrontamiento para alterar la situación, implicando una aproximación analítica y racional al problema (Folkman et al., 1986; Carver et al., 1989, Fernández-Abascal, 1997).

5. Conformismo-resignación: este concepto refleja una tendencia a la pasividad, a la percepción de falta de control sobre las consecuencias del problema y a la aceptación de consecuencias que puedan producirse (Fernández-Abascal, 1997). Incluye pensamientos de abandono y de que nada puede cambiar la situación (Brink, Persson y Karlson, 2009), así como al grado en el que los pacientes se perciben a sí mismos como indefensos para afrontar aspectos relacionados con el evento estresante o la enfermedad, como por ejemplo el tipo de tratamiento o los retos que supone el trastorno.

6. Aceptación: estrategia que hace alusión a la aceptación de que el estresor no puede ser modificado y a la necesidad de tener que adaptarse al mismo (Carver

et al., 1989). La persona acepta el diagnóstico y continúa con su vida sin una ansiedad excesiva relacionada con la enfermedad, sin buscar nueva información a menos que aparezcan síntomas nuevos (Greer y Watson, 1987). Según McCracken y Eccleson (2003), la aceptación supone un esfuerzo por detenerse en la búsqueda de una solución definitiva hacia problemas físicos, reorientando la atención hacia los aspectos positivos de la vida. En general, la aceptación refleja la presencia de cogniciones que promueven la integración de la experiencia de enfermedad dentro del estilo de vida del paciente (Karademas y Hondronikola, 2010) y que preparan a la persona para enfrentarse con las restricciones y cambios en su vida fruto de la enfermedad (Juczynski, 2001).

7. Apoyo social: percepción que tiene una persona de sentirse cuidada, querida, estimada, valorada y formando parte de una red social. Sus funciones más frecuentes son proveer información, feedback, apoyo emocional e instrumental (Cobb, 1976; Williams, 2005). Se pueden distinguir diferentes formas de apoyo social:

    7.1 Búsqueda apoyo social basado en el problema o instrumental: tendencia a realizar acciones para buscar en los demás, información y consejo sobre cómo resolver el problema. Algunas formas de apoyo social facilitan beneficios tangibles, tales como dinero u otras cuestiones prácticas. El apoyo social es fuente de información útil y necesaria así como un recurso para poder realizar tareas beneficiosas.

    7.2 Búsqueda apoyo social emocional: búsqueda de apoyo y comprensión en los demás, para la situación emocional en la que se encuentra.

7.3 Búsqueda de apoyo profesional: búsqueda del recurso profesional para solucionar el problema o consecuencias del mismo.

8. Negación: rechazo de la existencia del estresor o al intento de actuar como si el estresor no fuera real (Aldebot y Weisman, 2009). Wheeler y Lord (1999) ofrecen dos definiciones de negación: a) una respuesta de afrontamiento dinámica empleada como forma de auto engaño para proteger a la persona frente a las amenazas y b) un mecanismo de defensa, intra-psíquico e inconsciente que alivia los conflictos emocionales y la ansiedad del individuo.

9. Evitación: proceso que incluye evaluaciones excesivamente negativas sobre pensamientos no deseados, sentimientos o sensaciones, renuncia a experimentar estas experiencias privadas y esfuerzos deliberados para controlarlos y escapar de ellos (Bach, Morán y Hayes, 2008). Hace referencia a la estrategia que desvía la atención de la fuente de estrés o de la respuesta al estresor (Suls y Fletcher, 1985). Incluye esfuerzos cognitivos y conductuales orientados a la minimización y otras maneras de evitar afrontar directamente las demandas del estresor.

   Moos y Schaefer (1993) proponen diferentes tipos de evitación:

   9.1 Evitación emocional: estrategia emocional en la cual se evitan expresar las emociones, dada la carga emocional o la desaprobación social (Moos y Schaefer, 1993).

   9.2 Evitación comportamental: estrategia en la que llevan a cabo actividades o acciones que contribuyan a tolerar el problema o eliminar o neutralizar las emociones generadas por las mismas. Búsqueda de recompensas alternativas, expresión de emociones y

conductas conducentes a la reducción de la tensión (Moos y Schaefer, 1993).

9.3 Evitación cognitiva: estrategia en la que se busca eliminar o neutralizar los pensamientos valorados como negativos o perturbadores, a través de la distracción o negación. Esta táctica cognitiva se utiliza para evitar pensamientos relacionados con los peligros de una situación de alto riesgo (Moos, 1993; Moos y Holahan, 2003).

Otras subcategorías que podemos considerar dentro de la categoría del afrontamiento evitativo (Lazarus y Folkman, 1984) son la respuesta paliativa y el pensamiento desiderativo:

10. Respuesta paliativa: incluir en su afrontamiento elementos que buscan la evitación de la situación estresante, intenta sentirse mejor fumando, bebiendo o comiendo (Fernández-Abascal, 1997).

11. Pensamiento desiderativo: interacción entre los deseos y preferencias de una persona con los resultados y con las expectativas y predicciones del resultado (Liegey, 1999). Es decir, al deseo de que el estresor no exista o imaginar que el estresor desaparecerá por sí mismo, fantaseando o esperando la ocurrencia de un milagro (Tamres, Janicki y Helgeson, 2002).

12. Autoculpación: la autoculpabilidad hace que el sujeto valore su responsabilidad en el inicio u origen del problema.

13. Culpación de otros: la culpación de otros hace que el sujeto atribuye a otras personas la causa de un problema, de sus consecuencias o de un estado interpersonal o psicológico negativo (Tennen y Affleck, 1990).

14. Religiosidad: conductas aproximativas al problema por medio de la religión o a través de una fuerza superior (Carver et al., 1989).

15. Confrontación: actuación dirigida al enfrentamiento directo de las situaciones, que habitualmente se traduce en el uso de estrategias asertivas. Estas estrategias, en ocasiones, pueden implicar conductas arriesgadas y hostiles empleadas para alterar la situación (Folkman et al., 1986).

16. Aceptación de la responsabilidad: supone reconocer el propio rol en el problema, junto con el compromiso de intentar que las cosas vayan a mejorar (Folkman et al., 1986).

17. Espera: estrategia que busca que la situación se resuelva por sí sola con el pasar del tiempo. Esperar supone permanecer inactivo, a la expectativa, retrasando los sentimientos de esperanza de un cambio favorable. También supone estar preparado o disponible para actuar (Irvin, 2001).

18. Refrenar el afrontamiento: esta estrategia está íntimamente ligada a la anterior, la espera. Refrenar el afrontamiento supone el aplazamiento de todo tipo de afrontamiento hasta que no se produzca una mayor y mejor información sobre el problema (Carver et al., 1989). Es una estrategia cognitiva que busca conocer

más sobre el problema o aclarar la eficacia de las alternativas, antes de enfrentar el estresor.

19. Espíritu de lucha: estilo de afrontamiento activo positivo marcado por una actitud altamente optimista, acompañada por la búsqueda de mucha información sobre la enfermedad. El paciente acepta el diagnóstico, usa la palabra enfermedad y está determinada a luchar contra ella. También trata de obtener cuanta más información mejor preguntando a los expertos o leyendo literatura sobre el tema. Denota una actitud optimista, viendo la enfermedad como un reto, queriendo ser informado sobre la enfermedad y formando parte de las decisiones de tratamiento (Fitzpatrick, 2000; Greer, 2007).

20. Preocupación ansiosa: el paciente reacciona ante el diagnóstico con ansiedad persistente, a veces incluso con depresión, buscando información sobre la enfermedad pero con una tendencia a interpretar la información desde una perspectiva negativa. Puede buscar ayuda de diferentes formas, incluso con medicina alternativa (Greer y Watson, 1987).

21. Futuro incierto: incapacidad para determinar el significado de las circunstancias relacionadas con la enfermedad, sensación de incertidumbre. La persona no puede estructurar o categorizar de manera adecuada la situación ya que no posee ninguna indicación o información (Mishel y Barron, 2012). También se refiere a la ambigüedad en los límites, definido como un estado en el los miembros de la familia tienen incertidumbre sobre los roles que tienen que llevar a cabo dentro del sistema familiar (Boss, 2002).

22. Anticipación: la persona se prepara mentalmente para un deterioro físico. Es común la planificación de cómo se resolverán las cuestiones prácticas del deterioro funcional. Supone la vivencia del presente sin preocupación exagerada por el futuro.

23. Secretismo: este tipo de afrontamiento no implica negación, pero sí sentimientos de vergüenza en la persona. Se oculta la enfermedad ante los otros y se evitan situaciones que puedan mostrarla (Ahlström y Sjöden, 1994).

24. Comparación social: tendencia a relacionar las características propias actuales o potenciales con las de otros, ya sean reales o imaginarias (Buunk, 2005). Es un proceso cognitivo que valora información sobre una o más personas en relación a uno mismo (Wood, 1996).

25. Expresión emocional: esta estrategia canaliza el afrontamiento hacia las manifestaciones expresivas hacia otras personas de la reacción causada por el problema (Fernández-Abascal, 1997).

Estas variables referentes a las diferentes estrategias de afrontamiento del estrés, empleadas por parte de padres y madres con hijos e hijas con enfermedades neuromusculares, se analizarán teniendo en cuenta diferentes momentos vitales que acompañan al proceso de adaptación a la enfermedad y que a continuación se detallan:

- Experiencia actual con respecto a la experiencia particular del familiar.
- Vivencia del momento del diagnóstico.

- Descripción de la relación de pareja, impacto de la enfermedad, cambios experimentados, comunicación.
- Sentimientos acerca del futuro.

4.9. Instrumentos

4.9.1. Entrevista semiestructurada

La información se recogió a partir de una entrevista semiestructurada con tipo de respuesta libre, en la que se recabó información relacionada con diferentes aspectos de la vivencia del familiar sobre la enfermedad del hijo o hija, concretamente con los estilos de afrontamiento. La entrevista se estructuró como guía con el fin de asegurar que se exploraran los mismos temas en todos los participantes, favoreciendo la organización y el análisis de las respuestas y reduciendo el efecto del entrevistador (Patton, 2002). Dichas entrevistas se llevaron a cabo de manera individual y presencial entre los meses de marzo y octubre de 2007. Cada participante fue entrevistado en una ocasión durante un periodo aproximado de hora y media duración.

A continuación, se detalla los apartados y subapartados de las entrevistas realizadas:

Aspectos sociodemográficos:

Nombre
Edad
Estudios
Fecha nacimiento
Enfermedad hijo/a
Año diagnóstico
Edad hijo
Estudios hijo

Con respecto a la experiencia particular del familiar:

Me gustaría que me hablases de tus sentimientos y pensamientos sobre:
La situación de tu hijo/a.
Cómo te sientes
Influencia a nivel laboral
Cómo es tu red social, amistades
Cómo te encuentras físicamente
Influencia en el desarrollo personal
Ocio y tiempo libre: (actividades lúcidas, tiempo libre)

Como viviste el momento del diagnostico

Con que apoyos contáis: sociales, ayudas técnicas, familiares, médicos, económicos...

Con respecto al niño/ a-adolescente:

Háblame sobre tu hijo; colegio; actividades extraescolares
Servicios recibidos/ cuidados especiales que necesita
¿Cómo crees que él vive la enfermedad?: (colegio, amigos, autoestima, forma de ser, tiempo libre, conciencia de enfermedad)
Que estrategias usas para: Ayudarle en las tareas del colegio; Ayudarle en situaciones sociales (amigos, colegio, familiares); Aceptar su discapacidad

Como describirías vuestra relación de pareja (diferencias entre antes y después del diagnóstico)

Si tuvieras que destacar los puntos fuertes, puntos menos fuertes
Como describirías vuestra comunicación
Como están repartidas las tareas/ roles

Sentimientos acerca del futuro

4.10. Procedimiento

Para el reclutamiento de la muestra, se mantuvieron diferentes contactos con los coordinadores de las asociaciones de enfermedades neuromusculares de Bizkaia, Alava y Asturias. Tras recabar la información de contacto de los padres y madres interesados, se les invitó a acudir a una reunión explicativa en la Universidad de Deusto y en las Asociaciones de Alava y Asturias. En esta sesión, se expusieron las características y objetivos de este estudio y se invitó a participar de manera voluntaria en el mismo. Los familiares interesados dieron sus datos de contacto y posteriormente se les citó individualmente en la Universidad de Deusto.

La recogida de información se llevó a cabo a partir de la realización de entrevistas semi-estructuradas. Dichas entrevistas tuvieron lugar en la Universidad de Deusto, los locales de la Asociación de Enfermos Neuromusculares de Alava, los locales de la Asociación de Enfermos Neuromusculares de Asturias y en tres de los domicilios de los propios familiares. Previa a la realización de la entrevista, cada familiar firmó un modelo de consentimiento informado (anexo 1).

Las entrevistas se realizaron entre el periodo comprendido entre abril y octubre de 2007 y tuvieron una duración aproximada entre una hora y media y dos horas. En ella, cada padre o madre era entrevistado de manera individual por la misma psicóloga en todos los casos.

4.11. Análisis de los datos cualitativos

Las transcripciones de cada entrevista sirvieron como base para el análisis cualitativo de las mismas. El análisis de las entrevistas se realizó siguiendo el procedimiento señalado por Boyatzis, (1998) y sintetizado por Braun & Clarke, (2006). En este sentido, el análisis fue realizado de forma independiente por dos jueces: la autora de la tesis y una persona licenciada en Psicología. Previo al análisis, los jueces profundizaron en el conocimiento de la Teoría del Afrontamiento de Lazarus, así como en las técnicas de análisis cualitativo, especialmente en el análisis deductivo.

El análisis de las entrevistas siguió las siguientes fases:

1. El primer paso del análisis consistió en la familiarización de los jueces participantes con los datos aportados por las entrevistas y con las estrategias de afrontamiento seleccionadas para el posterior análisis. En este sentido, se acordó que las respuestas, definidas como expresiones coherentes de contenido, tenían que reflejar estilos de afrontamiento y estresores de los familiares relacionados con la enfermedad neuromuscular de sus hijos/as.

2. Los jueces identificaron de manera independiente los extractos que representaban los diferentes tipos de afrontamiento y estresores en las 10 entrevistas transcritas, teniendo en cuenta las definiciones descritas con detalle en el capítulo segundo. De esta forma, los contenidos fueron clasificados por cada uno de los jueces usando las categorías de afrontamiento del estrés.

3. El paso anterior generó una selección de estrategias de afrontamiento y estresores en las que todos los jueces coincidían y otras en las que no. Las categorizaciones de los jueces se compararon y se discutieron cada 10 entrevistas. Cuando éstos no estaban de acuerdo sobre el tipo de afrontamiento involucrado en una frase o unidad de contenido, se llevaba a cabo una discusión. También surgieron nuevas categorías que no encajaban dentro de las definidas previamente y en las que los diferentes jueces lograban acuerdo. Por ejemplo la categoría negación, fue ampliada a dos subcategorías: negación del hecho y negación de la implicación, a sugerencia de uno de los jueces.

4. Finalmente, se volvieron a analizar todas las entrevistas en base a las nuevas categorías acordadas entre los jueces.

5. Tras la discusión final, se calcularon los valores Kappa de acuerdo a Cohen (1960) para evaluar el acuerdo interjueces. Para comprobar el grado de fiabilidad del procedimiento de análisis, se calculó el grado de acuerdo interjueces, establecido a través de la fórmula indicada, corrigiendo la influencia del efecto del acuerdo por el azar.

$$\kappa = \frac{P_o - P_e}{1 - P_e}$$

Esta fórmula P(o) representa el acuerdo relativo observado entre dos jueces y P(e) la probabilidad de que el acuerdo se haya debido al azar. La clave de esta ecuación es su denominador: corrige la diferencia observada en el numerador por el grado de acuerdo posible más allá del azar (Dubé, 2008).

El valor de *Kappa* resultante fue de 0.94, mostrándose un acuerdo muy fuerte (Landis y Koch, 1977).

4.12. Análisis cuantitativo de los datos:

Con el objetivo de llevar a cabo un estudio cuantitativo de los datos obtenidos en el análisis temático, se realizaron diferentes análisis estadísticos basados en la estadística descriptiva e inferencial (Sullivan, Mikail y Weinshenker, 1997).

En primer lugar, se llevó a cabo la prueba de Kolmogorov-Smirnov para determinar el ajuste a la distribución normal. En este sentido, se tuvo en cuenta un valor $p>0.05$ para emplear estadísticos paramétricos y un valor $p<0.05$ para optar por estadísticos de carácter no paramétrico.

En segundo lugar, se comprobó que las muestras eran homogéneas mediante la prueba no paramétrica de Mann-Withney (edad x esperanza de vida) y para la comparación de variables categóricas (género x esperanza de vida) se aplicó la prueba de Chi cuadrado.

Para determinar la frecuencia de estrategias de afrontamiento expresadas por los familiares se la estadística descriptiva se usaron las medias (desviación estándar) y números absolutos (sumas).

Con el fin de comparar las puntuaciones medias se usó la prueba no paramétrica de Mann-Whitney (género y esperanza de vida). El grado de asociación entre variables

cuantitativas se determinó mediante el cálculo del coeficiente de correlación no paramétrico de Spearman. Los valores de *p* inferiores a 0.05 se consideraron estadísticamente significativos. Para calcular los tamaños del efecto se utilizaron, por un lado, las correlaciones y por otro, puntuaciones *r* para la prueba de U de Mann Whitney, considerándose resultados entre .3 y .45 como tamaño del efecto moderado y resultados mayores de .45 como tamaño del efecto alto (Field, 2009). Los datos se analizaron mediante la aplicación estadística SPSS (v.18).

CAPÍTULO 5

5.1. Resultados I: Parte descriptiva

En este apartado se van a describir de manera gráfica las características sociodemográficas más relevantes con respecto a los participantes en este estudio. En primer lugar, cabe destacar las dos variables más importantes que se analizan con mayor profundidad a lo largo de este trabajo, el género de los participantes (tabla 4) y la presencia de muerte prematura asociada a la enfermedad de los hijos (tabla 5).

Tabla 4. Género de los progenitores

		Frecuencia	Porcentaje
Válidos	hombre	23	46,0
	Mujer	27	54,0
	Total	50	100,0

Tabla 5. Presencia de muerte prematura asociada a la enfermedad y género progenitores

	Enfermedad muerte prematura	Enfermedad muerte no prematura	**TOTAL**
Mujer	15	12	**27**
Hombre	15	8	**23**
TOTAL	**30**	**20**	**50**

A continuación, se presentan los datos relativos a la edad, tanto de los progenitores como de los hijos afectados (tabla 6 y 7).

Tabla 6. Edad de los participantes en el estudio

	N	Mínimo	Máximo	Media	Desv. típ.
Edad Participantes	50	26	53	40,94	5,301
Edad Padres	23	26	51	42,00	5,576
Edad Madres	27	31	53	40,04	4,981

Tabla 7. Edad de los hijos

	N	Mínimo	Máximo	Media	Desv. típ.
Edad Hijo	50	3	17	9,50	4,151

Por último, se describen las características específicas en relación al tipo de enfermedad (figura 2) y el tiempo transcurrido desde la fecha del diagnóstico en años (tabla 8).

Figura 2. Tipos de enfermedad

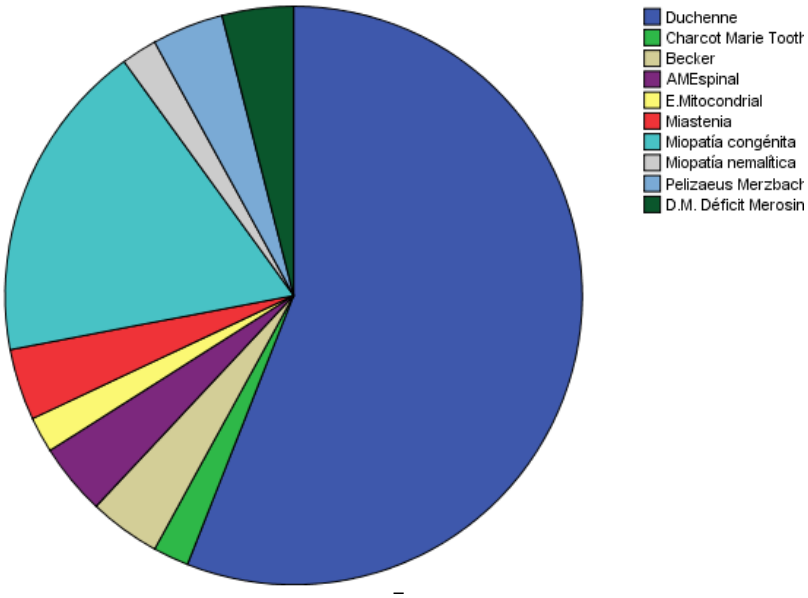


Tabla 8. Tiempo transcurrido desde la fecha del diagnóstico

N	Mínimo	Máximo	Media	Desv. típ.
50	1	16	6,74	4,360

5.2. Resultados II: Parte inferencial

5.2.1. Análisis de los supuestos de normalidad de las variables estudiadas

Los datos cualitativos provenientes de las entrevistas, tras ser transformados en datos cuantitativos, se analizaron estadísticamente a través de pruebas no paramétricas, debido al tamaño muestral. En este sentido, la prueba de Kolmogorov-Smirnov reflejó valores $p<.005$ en todas las variables (tabla 9), lo que establece la conveniencia del empleo de pruebas no paramétricas, como la U de Mann-Withney o la r_s de Spearman.

Tabla 9. Prueba de Kolmogorov-Smirnov

	D	gl	Sig.
Aceptación	,259	50	,000
Aceptación responsabilidad	,535	50	,000
Anticipación	,196	50	,000
Autocontrol	,536	50	,000
Autoculpación	,348	50	,000
Búsqueda apoyo social emocional	,156	50	,004
Falta apoyo emocional	,313	50	,000
Búsqueda apoyo social instrumental	,378	50	,000
Búsqueda de apoyo profesional	,232	50	,000
Falta apoyo profesional	,265	50	,000
Búsqueda de soluciones	,144	50	,011
Otro hijo	,497	50	,000
Comparación social abajo	,292	50	,000
Comparación social arriba	,329	50	,000
Conformismo resignación	,271	50	,000
Confrontacion	,256	50	,000
Culpaciónotros	,488	50	,000
Dependenciaemocional	,381	50	,000
Sobreprotección	,214	50	,000
Desarrollopersonal	,329	50	,000
Distanciamiento	,536	50	,000
Fatiga	,329	50	,000
Tristeza	,180	50	,000
Ansiedad	,230	50	,000
Salud	,329	50	,000
Espera	,412	50	,000
Espíritu lucha	,250	50	,000

Evaluación positiva	,248	50	,000
Esperanza	,454	50	,000
DiaaDia	,259	50	,000
Normalidad	,477	50	,000
Humor	,536	50	,000
Evitación cognitiva	,228	50	,000
Evitación comportamental	,266	50	,000
Ocio	,318	50	,000
Trabajo	,533	50	,000
Suidicio	,468	50	,000
Evitación afrontamiento	,531	50	,000
Expresión emocional	,245	50	,000
Expresión emocional No	,255	50	,000
Futuro incierto	,205	50	,000
Negación	,263	50	,000
Pensamiento desiderativo	,222	50	,000
Preocupación ansiosa	,249	50	,000
Refrenar afrontamiento	,394	50	,000
Religiosidad	,514	50	,000
Respuesta paliativa	,488	50	,000
Secretismo	,491	50	,000
Secretismo No	,523	50	,000
Supresión actividades distractoras	,482	50	,000
Dependencia física	,429	50	,000

5.2.2. Homogeneidad de las variables sociodemográficas de la muestra

Debido a que las variables relacionadas con el afrontamiento van a analizarse, principalmente, teniendo en cuenta el género de los progenitores y la esperanza de vida asociada a la enfermedad (muerte prematura/muerte no prematura), a continuación se analizan las diferencias entre dichos grupos en relación a diferentes variables sociodemográficas, concretamente: los años de escolarización del progenitor, la edad de los hijos afectados y los años transcurridos desde el diagnóstico de la enfermedad. Dicho análisis se realiza con el fin de comprobar que los grupos son homogéneos en relación a las variables descritas.

5.2.3. Comparación de las variables sociodemográficas teniendo en cuenta el género de los participantes.

Si comparamos la variable edad teniendo en cuenta el género de los participantes, los resultados muestran que no existen diferencias significativas (U=239, *p*=.165).

En relación a la variable género de los padres, la distribución es la misma en cuanto a los años de escolarización de los padres (U=308, *p*= .968), la edad de sus hijos (300, *p*= .837) y los años desde el diagnóstico de la enfermedad (U= 299, *p*=.822).

5.2.4. Comparación de las variables sociodemográficas teniendo en cuenta la esperanza de vida de los hijos de los participantes (muerte prematura/muerte no prematura).

La distribución de la variable edad de los padres es las misma entre las categorías de muerte prematura y muerte no prematura (U= 282, *p*=.610), al igual que la distribución de la variable género (X^2 = .410, gl=1, *p*= .522).

De la misma manera, las siguientes variables muestran la misma distribución si comparamos al grupo de padres y madres según la esperanza de vida: los años de escolarización del padre (U= 256, *p*=.300), la edad de los hijos (U= 266, *p*= .409) y los años transcurridos desde el momento del diagnóstico (U= 289, *p*= .709).

5.3. Resultados III: Comparación entre grupos teniendo en cuenta el género y la esperanza de vida (muerte prematura-muerte no prematura), de forma separada.

5.3.1. Pregunta de investigación 1: ¿Cuál es la vivencia del familiar en relación al presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

En este apartado se describen las estrategias de afrontamiento centradas en el presente, expresadas por los familiares a través de las entrevistas. Para la descripción de dichas estrategias se ha tenido en cuenta la variable género y la esperanza de vida (tabla 12).

En este sentido, el estilo de afrontamiento más frecuentemente descrito por los hombres (ver figura 3) es la búsqueda y planificación de soluciones (*uso de furgoneta con plataforma, aparatos para ayudar al afectado a respirar, empleo de silla de ruedas, búsqueda de información en Internet o en revistas especializadas*).

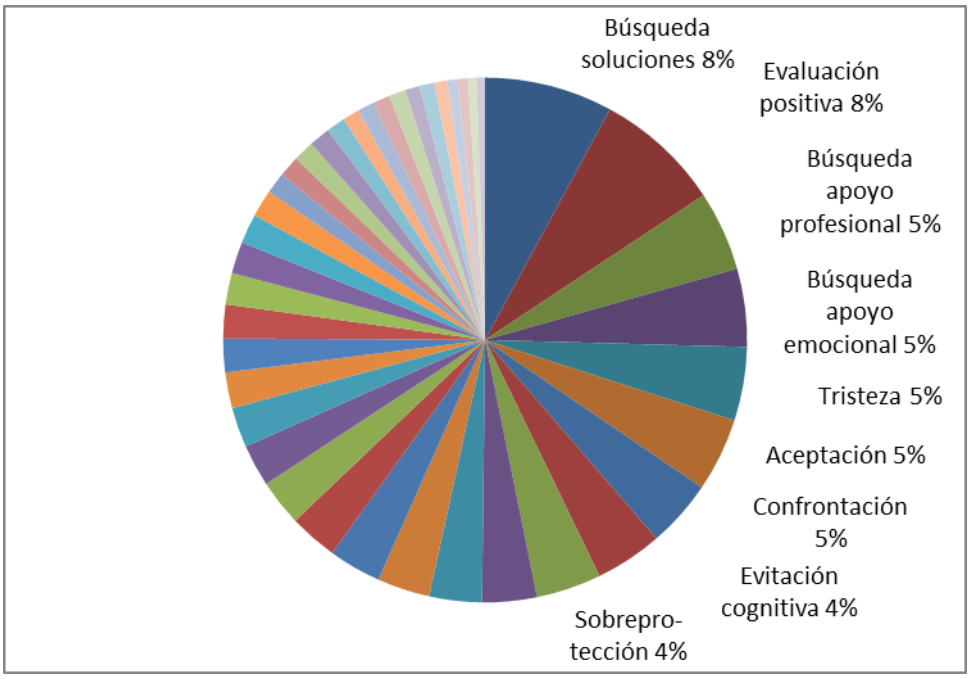
El segundo estilo relatado por los hombres es la evaluación positiva ("*…cuando me vienen a la cabeza procuro pensar en lo bueno.*", "*…gracias a que he estado mal he encontrado algo que tenía y que no he sabido apreciar. Te das cuenta de que hay otra vida. He redescubierto a los niños, no sabía que existían, he redescubierto un hobbie: hablar con ellos*").

En tercer y cuarto lugar se encuentran la búsqueda de apoyo profesional *("...el crio ha ido al psicólogo y ha cambiado", "...la que lleva el peso de los niños es mi mujer, aunque tenemos ayuda de una chica del ayuntamiento")* y la búsqueda de apoyo

emocional, respectivamente *("...tengo grandes amigos en esta enfermedad, nos lloramos mutuamente", "...tengo buenos amigos en los que confío, que me apoyan y están pendientes de la evolución de la enfermedad").*

Otras estrategias detalladas frecuentemente por los hombres son la tristeza, la aceptación *("...sabemos a lo que nos exponemos... tratas de vivir con ello, acostumbrarte", "...acostumbrarse a lo que hay. Sé la verdad, lo que va a pasar")*, la confrontación *("...no puedo hundirme porque si no mi mujer se hunde")*, la evitación cognitiva *("...procuras no pensar, no adelantas nada ahondando más")*, la sobreprotección *("cuando él quiere algo se lo compro, si quiere ir a algún sitio y podemos ir, vamos"; "...con mi mujer es como si hubiésemos firmado un contrato, no voy a fastidiar todo para que él no sufra")* y la vivencia del día a día *("Es mejor vivir lo que tienes, vivir el momento...")*.

Figura 3. Porcentaje de estrategias de afrontamiento en el colectivo de hombres.



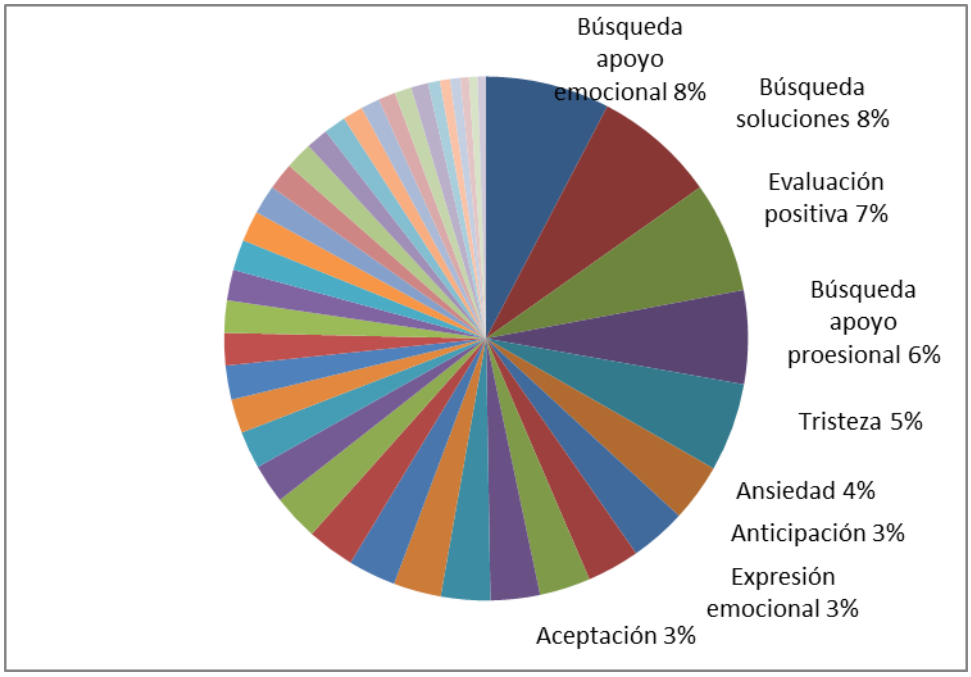
En cuanto a las mujeres (ver figura 4), el primer estilo de afrontamiento que con más frecuencia se describe a lo largo de las entrevistas es la búsqueda de apoyo emocional *("Hace un año y medio que estamos en la asociación…con ellos siento que no estoy sola"; "…conservo las mismas amistades que antes, tengo gente con la que desahogarme")* y en segundo lugar la búsqueda y planificación de soluciones *("…tiene problemas con las profesoras porque va lento al escribir y antes le castigaban. Tuve que ir a hablar con ellas y la cosa mejoró"; "…el piso donde vivimos ahora lo estamos adaptando todo").*

El tercer tipo de afrontamiento que con más frecuencia se encuentra es la evaluación positiva ("*Hay que pensar en lo positivo"; "Está recién diagnosticado, optimismo, la ciencia avanza rápido";"…la calidad de familia es distinta, se ganan otras cosas").*

Otras estrategias de afrontamiento que se expresan con frecuencia a lo largo de las entrevistas con las mujeres son la búsqueda de apoyo profesional *(neurólogo, logopeda, fisioterapeuta, auxiliar, colegio a domicilio, psicólogo, profesor de apoyo, acupuntura, homeopatía, entre otros),* la anticipación *("el año que viene le van a poner un profesor de apoyo"; "le queremos poner un corsé"),* la expresión emocional *("Siempre le digo que su tiene algún problema que pregunte"; "no tengo ningún problema a la hora de hablar sobre lo que me pasa"),* la aceptación *("…"tendré que aprender a vivir con esto"),* el espíritu de lucha *("he estado meneándome por Francia, Italia …al final conseguí que le operaran", "sales de esta situación como puedes, no sé cómo, pero sales)* y la sobreprotección *("a cualquiera no le puedes dejar con los niños").*

A lo largo de las entrevistas se encuentran múltiples referencias a expresiones emocionales relacionadas con la ansiedad *("…me cuesta más dormir y me despierto muy pronto…tengo palpitaciones"; "he tenido ataques de ansiedad")* y la tristeza *("…estuve fatal, todo el día llorando"; "a veces me gustaría llorar"; "cuando estoy baja, me pongo triste, a veces pienso hasta en estrellarme con el coche").*

Figura 4. Porcentaje de estrategias de afrontamiento en el colectivo de mujeres.



Para analizar estadísticamente la existencia de diferencias en el uso de estrategias de afrontamiento entre hombres y mujeres se aplicó la prueba estadística Mann-Withney. Esta prueba no paramétrica reveló diferencias significativas en las estrategias siguientes, tal y como se refleja en la tabla 10: autoculpación, búsqueda de apoyo emocional y supresión de actividades distractoras. Atendiendo a la significación estadística, fruto de la comparación de ambos grupos, las dos primeras estrategias son

empleadas en mayor medida por las mujeres, mientras que las dos últimas lo son por el colectivo de padres. También se encuentran diferencias en cuanto al género en el nivel de distress percibido y en la presencia de problemas de salud. En todas las variables se obtiene un tamaño del efecto medio-alto, entre *r* = -.034 y *r* =-.044.

Tabla 10. Diferencia de medias según el género (Prueba U de Mann-Whitney)

Estrategia	Género	Rango promedio	U Mann-Whitney	*P*	*r*
Autoculpación	Hombre (n=23)	20.33			
	Mujer (n=27)	**29.76**	407	.010**	-.44
Búsqueda apoyo emocional	Hombre (n=23)	18.67			
	Mujer (n=27)	**31.31**	467	.002**	-.42
Problemas salud	Hombre (n=23)	20.72			
	Mujer (n=27)	**29.57**	420	.013*	-.37
Distress	Hombre (n=23)	20.12			
	Mujer (n=27)	**30.19**	437	.013*	-.34
Supresión activid. distractoras	Hombre (n=23)	**29.83**			
	Mujer (n=27)	21.81	211	.007**	-.34

*p <.05; **p <.01; r = tamaño del efecto

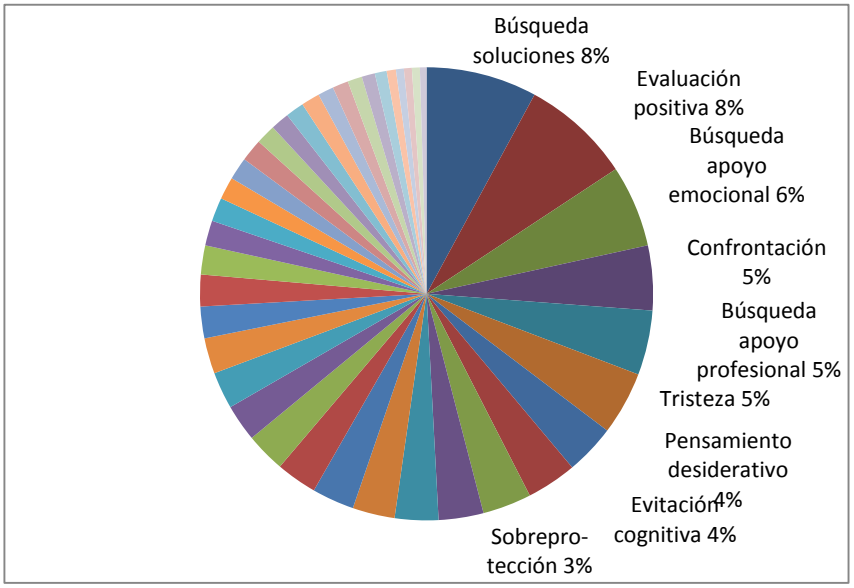
En relación a la esperanza de vida (figura 5), el grupo de padres y madres con hijos con enfermedades que conllevan muerte prematura expresan en primer lugar la estrategia de búsqueda y planificación de soluciones *("en esta familia no nos hemos obsesionado, se solucionan las cosas")* y en segundo lugar, la evaluación positiva *("soy bastante optimista con respecto al futuro"; "...por lo menos tiene mejor calidad de vida que mi hermano…que padeció la enfermedad años antes"; "desde los doce años hasta ahora ha mejorado mucho la calidad de vida").*

Las siguientes estrategias destacadas son la búsqueda de apoyo emocional *("tengo amigas a la que comentarles las cosas")*, la confrontación *("... podemos hacer cualquier cosa"; "tengo un trabajo muy arriesgado, bien pagado, trabajo mucho, es*

fundamental";"... a veces te comes el mundo...") y la búsqueda de apoyo profesional *(neurólogo, logopeda, fisioterapeuta, auxiliar, colegio a domicilio, psicólogo, profesor de apoyo, acupuntura, homeopatía, entre otros).*

También cabe destacar otras estrategias empleadas frecuentemente como el pensamiento desiderativo *("me encantaría que encontraran algo, que no dejen las cosas así"; "cómo me gustaría sentirme como antes"; "ojalá tuviese un cáncer yo y el estuviese bien", ¿cómo sería mi vida si ella fuese normal?")*, la evitación cognitiva *("lo mejor es abstraerse"; "cuando estoy mejor soy capaz de apartarlo antes...")* o la sobreprotección *("...está muy consentido, todo lo que quiere lo tiene sin mucho trabajo, pero yo no lo puedo evitar porque si vive menos que yo, que viva más intensamente la vida").*

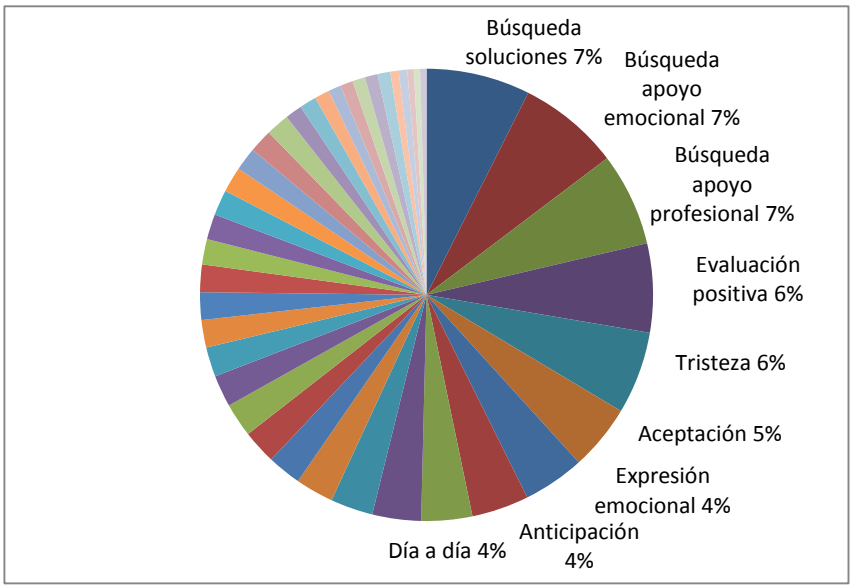
Figura 5. Porcentaje de estrategias del grupo con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura.



Si se analizan los estilos de afrontamiento del grupo de padres y madres cuyos hijos o tienen una enfermedad que no compromete a corto plazo la esperanza de vida (figura 6), se puede observar que las tres primeras estrategias empleadas son la búsqueda y planificación de soluciones *(silla de ruedas, ascensor, furgoneta adaptada, baño adaptado, cama adaptada, búsqueda de información en Internet, entre otras)*, la búsqueda de apoyo emocional *("…mucha amistad con una familia con un niños con Síndrome de Down, parece que te entienden, estás más unido a ellos")* y la búsqueda de apoyo profesional *("tenemos una chica que nos ayuda";" voy a la psicóloga cada dos meses…"; "el crio tiene fisioterapeuta, auxiliar y logopeda"; "Tiene fisio en el colegio todos los días, también tiene una cuidadora").*

A continuación, aparecen estilos asociados con la evaluación positiva *("…tienes la ilusión del día a día"; "veo que va mejorando y me siento mejor"; " a veces ves a otras personas que están alegres con un problema que tiene su hijo y te planteas que tú mismo también puedes estar así")*, la aceptación *("ahora estoy mejor, lo tengo asimilado"; "lo primero es mirar por él, sea lo que sea es lo que hay")*, la expresión emocional *("…yo creo que hay que llorar", "…soy de llorar, de hablar…"; " soy una persona habladora, exterioriza es la mejor ayuda, si tengo que llorar lloro");* y la anticipación *("es bueno saber lo que hay para que no vuelva pasar en la familia"; "…tienes miedo a cuando te pregunte ella, a cómo se lo va a tomar"; "le damos una cucharada de la vida por las mañanas, le dices algo para que vea su limitación, para que se proteja cuando llegue el momento de que no pueda hacer algo, que no se ponga nervioso").*

Figura 6. Porcentaje de estrategias del grupo con hijos con enfermedad no asociada a muerte prematura.



Finalmente, se muestran los resultados obtenidos a partir de la prueba U de Mann-Whitney, en la que se determinaron las diferencias entre los familiares atendiendo al criterio de esperanza de vida (muerte prematura-no muerte prematura). En la tabla 11 se puede comprobar que la estrategia de afrontamiento basada en la búsqueda de apoyo instrumental es significativamente más empleada en el grupo con hijos con enfermedades que no conllevan muerte prematura; mientras que el uso de la confrontación, la evaluación positiva, la negación y el pensamiento desiderativo es mayor en el grupo con enfermedades cuya esperanza de vida se haya reducida de forma importante. En la tabla también se pueden observar los datos relacionados con el tamaño del efecto, siendo este medio-alto (r = 0.35 hasta r = 0.47).

Tabla 11. Diferencia de medias según la esperanza de vida de la enfermedad (Prueba U de Mann-Whitney)

Estrategia	Esperanza de vida	Rango promedio	U Mann-Whitney	*P*	*r*
Búsq. apoyo instrumental	M.P.	21.20			
	N.M.P.	**30.95**	428	.003**	-.35
Confrontación	M.P.	**30.93**			
	N.M.P.	18.59	156	.002**	-.45
Evaluación positiva	M.P.	**29.48**			
	N.M.P.	20.43	196	.026*	-.29
Negación	M.P.	**30.27**			
	N.M.P.	19.43	174	.002**	-.47
Pensamiento desiderativo	M.P.	**29.23**			
	N.M.P.	20.75	203	.032*	-.42

Note: M. P. = Muerte prematura; M. N. P.= Muerte no prematura. *p <.05; **p <.01. *r* = tamaño del efecto

Tabla 12. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados(muerte prematura/muerte no prematura)

Todos (n=50)		Género: Hombres (n=23)		Género: Mujeres (n= 27)		Esperanza de vida: Grupo muerte prematura (n= 28)		Esperanza de vida: Grupo muerte no prematura (n= 22)	
Búsqueda y planificación de soluciones	133	Búsqueda y planificación de soluciones	61	Búsqueda de apoyo social emocional	73	Búsqueda y planificación de soluciones	84	Búsqueda y planificación de soluciones	49
Evaluación Positiva	125	Evaluación positiva	60	Búsqueda soluciones	72	Evaluación positiva	83	Búsqueda de apoyo emocional	48
Búsqueda apoyo emoción.	110	Búsqueda de apoyo profes.	38	Evaluación positiva	65	Búsque. apoyo emocional	62	Búsqueda apoyo profesional	44
Búsqueda apoyo profesio.	93	Búsqueda de apoyo emoc.	37	Búsqueda apoyo profesional	55	Confrontación	49	Evaluación positiva	42
Tristeza	87	Tristeza	35	Tristeza	52	Búsqueda de apoyo profes.	49	Tristeza	39
Aceptación	65	Aceptación	35	Ansiedad	34	Tristeza	48	Aceptación	31
Sobreprotección	60	Confrontación	32	Anticipación	33	Pensamiento desiderativo	38	Expresión emocional	29
Confrontación	60	Evitación cognitiva	32	Expresión emocional	31	Evitación cognitiva	38	Anticipación	27
Expresión emocional	56	Sobreprotección	31	Aceptación	30	Sobreprotección	37	Día a día	24
Anticipación	55	Día a día	26	Espíritu de lucha	29	Aceptación	34	Sobreprotección	23
Día a día	54	Pensamiento desiderativo	25	Sobreprotección	29	Ansiedad	33	Ansiedad	20
Pensamiento desiderativo	53	Expresión emocional NO	25	Pensamiento desiderativo	28	Expresión emocional NO	32	Espíritu de lucha	18
Ansiedad	53	Expresión emocional	25	Día a día	28	Evitación comportamental	32	Resignación	16
Evitación cognitiva	51	Evitación comportamental	23	Confrontación	28	Resignación	31	Búsqueda apoyo instrumental	16
Resignación	47	Anticipación	22	Resignación	27	Día a día	30	Falta apoyo emocional	16
Espíritu de lucha	46	Resignación	20	Preocupación ansiosa	23	Espíritu de lucha	28	Pensamiento desiderativo	15
Evitación comportamental	45	Ansiedad	19	Evitación comportamental	22	Anticipación	28	Preocupación ansiosa	14
Expresión emocional NO	45	Espíritu de lucha	17	Comparación social abajo	20	Expresión emocional	27	Expresión emocional NO	13
Comparación social abajo	36	Desarrollo personal	16	Expresión emocional NO	20	Comparación social abajo	24	Evitación cognitiva	13
Comparación social arriba	33	Comparación social abajo	16	Autoculpación	19	Negación	24	Evitación comportamental	13
Preocupación ansiosa	33	Negación	15	Evitación cognitiva	19	Comparación social arriba	22	Autoculpación	12
Falta apoyo emocional	28	Comparación social arriba	15	Comparación social arriba	18	Preocupación ansiosa	19	Dependencia emocional	12
Negación	27	Dependencia emocional	14	Falta apoyo emocional	18	Desarrollo personal	18	Comparación social abajo	12
Desarrollo personal	26	Ocio	13	Salud	18	Dependencia física	17	Falta de apoyo profesional	12
Falta de apoyo profesional	26	Supresión activ. Distract.	10	Fatiga	17	Salud	17	Comparación social arriba	11

Ocio	26	Falta apoyo profesional	10	Dependencia física	16	Fatiga	17	Ocio	11
Fatiga	25	Preocupación ansiosa	10	Falta de apoyo profesional	16	Ocio	15	Confrontación	11
Dependencia emocional	24	Falta apoyo emocional	10	Ocio	13	Falta apoyo profesional	14	Fatiga	8
Autoculpación	23	Refrenar afrontamiento	9	Búsqueda apoyo instrum.	13	Refrenar afrontamiento	14	Desarrollo personal	8
Dependencia física	23	Respuesta paliativa	8	Negación	12	Normalidad	14	Esperanza	7
Salud	23	Fatiga	8	Refrenar afrontamiento	11	Falta apoyo emocional	12	Respuesta paliativa	6
Búsqueda apoyo instrum.	21	Búsqueda apoyo instrum.	8	Desarrollo personal	10	Dependencia emocional	12	Dependencia física	6
Refrenar afrontamiento	20	Espera	8	Normalidad	10	Autoculpación	11	Refrenar afrontamiento	6
Normalidad	16	Esperanza	7	Dependencia emocional	10	Supr. activ. Distractoras	10	Espera	6
Espera	15	Dependencia física	7	Espera	7	Espera	9	Salud	6
Esperanza	13	Normalidad	6	Esperanza	6	Futuro incierto	7	Religiosidad	4
Supr. activid. distractoras	12	Futuro incierto	5	Religiosidad	6	Esperanza	6	Secretismo-no	4
Respuesta paliativa	12	Salud	5	Secretismo-si	5	Secretismo-si	6	Secretismo-si	3
Futuro incierto	10	Autoculpación	4	Culpación otros	5	Respuesta paliativa	6	Suicidio	3
Secretismo-si	9	Secretismo-si	4	Futuro incierto	5	Búsqueda apoyo social instrumental	5	Culpación otros	3

5.3.2. Pregunta de investigación 2: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al momento del diagnóstico según el género de los progenitores?

La vivencia que con mayor frecuencia se describe por el total de familiares entrevistados en relación con el diagnóstico es la tristeza y la sensación de falta de apoyo profesional (tabla 13). Estas sensaciones acompañan al total de la muestra, independientemente del género o de la esperanza de vida de sus afectados.

La tristeza, como reacción emocional ante el diagnóstico, se describe a través de la expresión de frases como: *("lloré mucho…"; caí en depresión…"; "esos días estuve sin dormir, sin comer, desanimado…"; "estuve super hundida").*

Aunque la búsqueda de apoyo profesional destaca entre las primeras estrategias activas de afrontamiento *("de médico en médico, muy liados"; "tuve que ir al psicólogo"; "hablamos con la genetista…"; " estuvimos en Barcelona, en Madrid, en Santander…")*, la percepción de falta de apoyo profesional adquiere una gran importancia en el momento del diagnóstico *("el médico me dijo que lo de la mielina no me interesaba y que iba a durar hasta la segunda década de vida"*; *"…nos tuvieron desde las once hasta las cuatro de la tarde, luego en la sala de los neurólogos nos dieron el zambombazo. No suelen tener mucho tacto"; "…parece que eres el último de la fila o el más tonto"; "estuve cuatro años preguntándole al pediatra qué es lo que tenía mi hijo, si le pillo lo mato"; "…fue muy desagradable, vinieron cuatro personas a hablar con nosotros en la misma habitación del niño y había otras dos familias más…, el médico nos dijo que tenía ese problema, nosotros preguntamos cómo iba a*

evolucionar…nos respondieron de forma desagradable: ya os hemos dicho que no sabemos cómo va a evolucionar…acto seguido me llevaron a una habitación para sacarme sangre, no me dejaron tiempo para el duelo").

El uso de la negación en el momento del diagnóstico destaca especialmente en el colectivo de mujeres, tanto en grupo con enfermedades que conllevan muerte prematura como las que no. La negación se refleja mediante diferentes aserciones: *("No te lo crees, yo lo negué"; "es como que no te lo crees"; "…me fui muy mal negándolo, yo le veía bien"; "lo primero que pensé es que se habían equivocado", "…fatal, al principio no lo aceptas").* El análisis efectuado con la prueba U de Mann-Whitney refuerza estas diferencias entre género a nivel estadístico (U= 399; p= .027; r = -.31), pudiéndose observar que es el colectivo de mujeres el que presenta mayor nivel de negación en el momento del diagnóstico.

El pensamiento desiderativo se encuentra entre las cinco primeras estrategias de afrontamiento empleadas tanto por las mujeres como por los hombres en los momentos más cercanos al diagnóstico: *("en el momento del diagnóstico pensé que iba a haber curación"; "me habría gustado recibir más información"; "…esperanza porque hay años por delante").*

La búsqueda y planificación de soluciones se halla dentro de las tres primeras estrategias de afrontamiento descritas por los familiares de niños con enfermedad que conlleva menor esperanza de vida: *(…"empezamos a mirar en Internet", "al principio leí sobre lo que suponía la distrofia muscular de Duchenne"; "…a mí se me pasó rápido, una vez que aprendí sobre la enfermedad";… ¿Qué es esto?...informarte).*

A nivel estadístico, la preocupación ansiosa fue más frecuentemente enunciada por los padres y madres cuyos hijos no tenían una enfermedad con muerte prematura asociada (U= 406; *p*= .001). Ejemplos de esta estrategia se encuentran a lo largo de las entrevistas: *("soy de darle vueltas pero no de deprimirme"; "al principio los sentimientos me limitaban, hoy no estoy todo el rato pendiente del problema de mi hija"; "no sabes qué te espera, no sabes a lo que te enfrentas, no sabes si vas a poder o saber enfrentarte, no sabes cómo se lo va a tomar, si va a ser doloroso, con quién puedes hablar, a quién debes contárselo… no sabes nada; "…cuando estaba peor le daba muchas vueltas al tema").*

Tabla 13. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al momento del diagnóstico según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura)

Todos (n=50)		Género				Esperanza de vida			
		Hombres (n=23)		Mujeres (n= 27)		Grupo muerte prematura (n= 28)		Grupo muerte no prematura (n= 22)	
Tristeza	26	Tristeza	21	Tristeza	27	Tristeza	22	Tristeza	26
Búsqueda apoyo profesional	8	Falta apoyo profesiónal	8	Falta apoyo profesional	15	Falta apoyo profesional	15	Búsqueda apoyo profesional	8
Falta de apoyo profesional	8	Resignación	5	Negación	13	Negación	11	Falta de apoyo profesional	8
Preocupación ansiosa	7	Pensamiento desiderativo	4	Búsqueda de apoyo profes.	11	Pensamiento desiderativo	7	Preocupación ansiosa	7
Negación	5	Búsqueda de soluciones	4	Pensamiento desiderativo	5	Búsqueda de soluciones	7	Negación	5
Futuro incierto	5	Futuro incierto	3	Búsqueda de soluciones	5	Búsqueda de apoyo profes.	6	Futuro incierto	5
Espera	4	Evaluación positiva	3	Búsquedaapoyo emocional	5	Ansiedad	5	Espera	4
Evaluación positiva	4	Búsqueda apoyo profes.	3	Preocupación ansiosa	4	Resignación	4	Evaluación positiva	4
Resignación	3	Preocupación ansiosa	3	Futuro incierto	4	Culpación otros	3	Resignación	3
Búsqueda apoyo emocional	3	Negación	3	Ansiedad	4	Falta apoyo emocional	3	Búsqueda apoyo emocional	3
Pensamiento desiderativo	2	Espíritu de lucha	3	Espera	3	Búsqueda apoyo emocional	3	Pensamiento desiderativo	2
Suicidio	2	Expresión emocional-no	2	Culpación otros	3	Expresión emocional-si	3	Suicidio	2
Búsqueda de soluciones	2	Evitación cognitiva	2	Suicidio	2	Espíritu de lucha	3	Búsqueda de soluciones	2
Religiosidad	1	Expresión emocional-si	2	Comparación social arriba	2	Expresión emocional-si	2	Religiosidad	1
Evitación comportamental	1	Ansiedad	2	Evaluación positiva	2	Evitación afrontamiento	2	Evitación comportamental	1
Culpación otros	1	Suicidio	2	Resignación	2	Refrenar afrontamiento	2	Culpación otros	1
Confrontación	1	Espera	2	Refrenar afrontamiento	2	Evitación cognitiva	2	Confrontación	1
Búsqueda apoyo instrument.	1	Falta apoyo emocional	2	Evitación afrontamiento	2	Confrontación	2	Búsqueda apoyo instrument.	1
Anticipación	1	Refrenar afrontamiento	1	Evitación comportamental	2	Futuro incierto	2	Anticipación	1
Secretismo-no	1	Fatiga	1	Confrontación	2	Suicidio	2	Secretismo-no	1
Refrenar afrontamiento	1	Culpación otros	1	Secretismo-si	1	Evitación comportamental	2	Refrenar afrontamiento	1

5.3.3. Pregunta de investigación 3: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación a la pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Tal y como refleja la tabla 14, la primera de las estrategias referidas por los hombres, teniendo en cuenta la relación de pareja, es la búsqueda de apoyo emocional *("Nos hemos apoyado mutuamente, es una gran mujer"; "Yo noto mucho apoyo en ella. Con verle los ojos y me doy cuenta de cómo está").* En segundo lugar, destaca la falta de expresión emocional *("La comunicación es menos fluida que antes"; "Cuando tengo que desahogarme recurro a mí mismo, me guardo lo bueno y lo malo, lo meto en el saco").*

Las siguientes estrategias más empleadas por el colectivo masculino con respecto a la pareja son: el desarrollo personal *("la calidad de familia es distinta, se ganan otras cosas"; "Los problemas nos unen más"; "...estamos más unidos que antes"; "La situación te une más…si discutes, te das cuenta de que estás haciendo el idiota cuando piensas en la situación")* y la planificación de soluciones *("…a veces nos tenemos que organizar….tenemos las tareas repartidas").* Por último, se hace referencia a la expresión emocional, espíritu de lucha *("…el punto fuerte de la pareja es luchar por la cría"; "nos sentimos más cómplices, trabajamos por él")* y la falta de apoyo emocional *("Para ella soy un apoyo, pero yo no tengo a nadie al que contar mis penas").*

Por su parte, las mujeres expresan en primer lugar la percepción de que les falta apoyo emocional por parte de su pareja *("Voy yo sola a todos los lados"; "tuve una*

pareja, pero el tema de la niña le supuso demasiado y nos abandonó"; "…a veces no encuentro el apoyo que quisiera"). La segunda estrategia que más relatan a lo largo de las entrevistas son la búsqueda de apoyo emocional *("…encontramos apoyo el uno en el otro"; "ahora estamos bien, me siento apoyada en mi marido")* y la búsqueda de soluciones *("mi marido le lleva al fisioterapeuta y le ducha, yo hago las tareas de la casa, le visto, le aseo,…"; "mi marido me ayuda muchísimo con el crio cuando está en casa o no trabaja").* A continuación, destacan las estrategias de expresión emocional *("…hablamos mucho"; "…sí hablamos del tema, aunque de vez en cuando, intentamos aunar criterios de educación") y* la falta de expresión emocional *("si estamos unidos es a cuenta mía, yo me lo trago").*

Cabe destacar la aparición de sentimientos de tristeza en el colectivo de mujeres *("Hemos vivido momentos tristeza…al principio los dos sufrimos, tenías tanta tristeza dentro…"; "…nos ha influido la enfermedad, no tengo apetito sexual").*

Si tenemos en cuenta las estrategias empleadas por el grupo de padres y madres con hijos con enfermedades que conllevan muerte prematura, destacan entre las primeras: la falta de expresión emocional *("…para que no lo pase mal, yo lloro sola"; "hubo una temporada que estuvimos sin hablar del tema"),* la búsqueda de apoyo emocional *("…siento apoyo en mi pareja")* y la falta de apoyo emocional *("…no noto mucho apoyo en él"; "…me siento bastante sola…me siento atada, he pensado en separarme pero no puedo").* A continuación, este colectivo de padres y madres describen otras estrategias tales como la búsqueda de soluciones *("Las tareas las tenemos repartidas al 50%")* y la expresión de emociones *("Siempre hemos evitado hablar del tema cuando está delante pero, a veces, cuando nos saca de quicio le*

decimos: sabemos que tienes un problema y que tenemos que estar pendientes, hagamos más llevadero el tema").

Los padres y madres con hijos con enfermedades que no comprometían la esperanza de vida, describen con mayor frecuencia el empleo de las siguientes estrategias de afrontamiento: búsqueda de apoyo emocional *("me ayuda mucho, él es más tranquilo"),* falta de apoyo emocional *("él se cierra en banda, al médico tengo que ir yo sola. Una sola no puede con todo"; "…él no lo vive como yo lo vivo"; "Yo soy de hablar mucho y él fue como: esto es así y no quiero hablar ni saber nada del tema. A veces te encuentras que estás mal, con tus amigos no te apetece hablar, a tu madre no quieres preocuparle y cuando hablas con tu marido te dice: ya estás otra vez con lo mismo. No podíamos hablar del tema"),* búsqueda de soluciones *("…a la hora de cuidarle, las tareas están repartidas")* y expresión emocional *("Siempre hemos hablado abiertamente de todo").*

La comparación con respecto al uso de estrategias de afrontamiento entre los diferentes grupos estudiados según la variable género (hombres-mujeres), se realizó con la prueba estadística U de Mann-Withney. En este sentido, la única variable que obtuvo puntuaciones diferentes a nivel estadístico fue la percepción de falta de apoyo emocional (U=401; p=.017). Concretamente, las mujeres alcanzaron puntuaciones superiores a los hombres (hombres= 21.54; mujeres= 28.74). Las diferencias encontradas tienen un tamaño del efecto medio (r = -.33).

Si analizamos los datos obtenidos de los participantes con la prueba no paramétrica U de Mann-Withney, según la esperanza de vida asociada a la enfermedad (muerte prematura-muerte no prematura), no se encuentran diferencias estadísticamente significativas.

Tabla 14. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación a la pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura)

		Género				Esperanza de vida			
Todos (n=50)		Hombres (n=23)		Mujeres (n= 27)		Grupo muerte prematura (n= 28)		Grupo muerte no prematura (n= 22)	
Búsq. apoyo emocional	20	Búsq. apoyo emocional	8	Falta apoyo emocional	14	Expresión emocional-no	9	Búsq. apoyo emocional	12
Falta apoyo emocional	16	Expresión emocional-no	7	Búsqueda apoyo emocional	12	Búsquedaapoyo emocional	8	Falta apoyo emocional	8
Expresión emocional-no	12	Desarrollo personal	4	Búsqueda de soluciones	8	Falta apoyo emocional	8	Búsqueda de soluciones	5
Búsqueda de soluciones	12	Búsqueda de soluciones	4	Expresión emocional	7	Búsqueda de soluciones	7	Expresión emocional	4
Expresión emocional	9	Expresión emocional-si	2	Tristeza	6	Expresión emocional	5	Expresión emocional-no	3
Tristeza	7	Espíritu de lucha	2	Expresión emocional-no	5	Tristeza	4	Tristeza	3
Desarrollo personal	5	Falta apoyo emocional	2	Búsqueda apoyo instrument	3	Desarrollo personal	3	Ocio	2
Búsqueda apoyo instrument	4	Evitación cognitiva	1	Ocio	2	Búsqueda apoyo instrument	3	Espíritu de lucha	2
Evaluación positiva	2	Tristeza	1	Ansiedad	2	Evaluación positiva	2	Distanciamiento	2
Espíritu de lucha	2	Futuro incierto	1	Resignación	2	Ansiedad	2	Desarrollo personal	2

5.3.4. Pregunta de investigación 4: ¿Cuáles son las estrategias de afrontamiento del familiar en relación al futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados?

Con respecto a las estrategias de afrontamiento vinculadas al futuro (tabla 15), todos los participantes coinciden en expresar con mayor frecuencia la percepción de futuro incierto, en primer lugar y la evitación cognitiva en segundo lugar. Ambas estrategias se encuentran en primer en el caso tanto de hombre como de mujeres, tanto en el caso de tener hijos con una enfermedad que conlleva esperanza de vida reducida como en el caso de que la esperanza de vida no se vea mermada.

El futuro incierto se manifiesta a través de diferentes afirmaciones, tales como *("¿Cómo reaccionaré yo?"; "las chavalitas empiezan a salir más lejos y pienso qué pasará con mi hija?"; ¿Qué va a ser de ella cuando nosotros no estemos?"; "...no sabemos lo que va a pasar"; "...incertidumbre"; "...no sé qué va a pasar"; ¿...cuando tenga 15 años, qué va a pasar?"; "...no sé qué progreso tendrá la enfermedad, no sé cuándo habrá un tratamiento").*

En cuanto a la evitación cognitiva, se pueden encontrar los siguientes ejemplos: *"Prefiero no pensarlo"; "...no quiero pensar"; "...paso de pensar en el futuro"; "no pienso en el futuro, no tiene sentido" "Si pienso en el futuro lo veo todo negro. Si no pienso, de colorines, prefiero no pensar".*

En cuanto al colectivo de hombres, las primeras estrategias de afrontamiento más reportadas en relación al futuro son las siguientes: la preocupación ansiosa *("Me*

preocupa la incertidumbre, dudas sobre mí mismo, ¿seré capaz de sobrellevarlo?; …pienso bastante sobre el tema, me pongo malo cuando pienso sobre el tema, esa noche no duermo y me levanto agotado. Pienso mucho sobre todo por la noche. A veces tengo pensamientos reiterativos de preocupaciones en general y me cuesta dejar de pensar en ello, igual durante dos días"), la tristeza *("pensar en el final me produce muchísima tristeza")*, la búsqueda de soluciones *("una de las claves para tener otro crio fue por ella";"…tenemos que formarnos"; "hay fármacos que pueden mejorar su situación")* y la aceptación *("los días se van a acabando"; "…con respecto a la investigación, no ha habido gran cosa"; "no veo que el niño se vaya a curar"; "El niño se muere, dentro de poco, ahora la escoliosis avanza, en cuestión de un año…me llevo varios años entrenando: va a pasar, no pasa nada").*

En el caso de las mujeres, la tercera estrategia descrita con mayor frecuencia es la búsqueda y planificación de soluciones *("he buscado información en Internet…"; "No será como los demás, pero puede buscar la manera de hacer otras cosas, adaptarse, haremos vida normal"; "yo aconsejaría a otros padres que tengn otros hijos porque tu 100% es tu hijo y eso es algo malo, si tienes otro hijo, ese 100%, se divide en 2").* Posteriormente y con una frecuencia similar, se encuentran el hecho de refrenar el afrontamiento *("…actuaré sobre la marcha…"; "…ya me prepararé"; "cuando llegue el momento ya se verá")*, la preocupación ansiosa *("siento angustia, paso de pensar en el futuro"; " Si pienso en el futuro me vuelvo loca pensando en que voy a faltar yo y qué va a ser de ella"; "ansiedad por saber lo que va a pasar…")*, la tristeza *("…pienso muchas veces que me puede faltar él y me da pena todo"; "unas veces te derrumbas…")* y la aceptación *("soy realista de que ahora no hay cura…"; "me planteo que sea feliz, esté como esté").*

Si analizamos el grupo de padres y madres cuyos hijos tienen una enfermedad con esperanza de vida reducida, la búsqueda de soluciones *("lo importante es formarse"; "…acomodar la vida a él"),* la tristeza *("yo no voy a poder con esto"; "…lo veo muy negro, siempre piensas en lo peor")* y la aceptación *("los días se van acabando"; "no veo que el niño se vaya a curar")* se encuentran dentro de los cinco primeros puestos.

Mientras que en el caso de los padres cuyos hijos no tienen riesgo de fallecer de forma prematura, las estrategias que con mayor frecuencia se relatan en relación al futuro son: la preocupación ansiosa *("Pienso bastante sobre el tema, me pongo malo cuando lo pienso";" si pienso en el futuro me vuelvo loca pensando…"),* el hecho de refrenar el afrontamiento *("ya me prepararé"; "no quiero llegar a ese momento"),* el espíritu de lucha *("lo conseguiremos"; "…hay que luchar por ello y no desesperarse"),* la búsqueda de soluciones *("tengo que solventar el día a día" "…puede buscar la forma de hacer otras cosas"),* la aceptación *("…con respecto a la investigación, no ha habido gran cosa"; "…me planteo que sea feliz esté como esté")* y la tristeza *("al futuro no le veo buena pinta"; "me pongo malo cuando lo pienso y esa noche estoy triste").*

Tabla 15. Frecuencia de estrategias de afrontamiento del familiar en relación al futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados (muerte prematura/muerte no prematura)

Todos (n=50)		Género				Esperanza de vida			
		Hombres (n=23)		Mujeres (n= 27)		Grupo muerte prematura (n= 28)		Grupo muerte no prematura (n= 22)	
Futuro incierto	45	Futuro incierto	25	Futuro incierto	20	Futuro incierto	20	Futuro incierto	25
Evitación cognitiva	25	Evitación cognitiva	9	Evitación cognitiva	16	Evitación cognitiva	15	Evitación cognitiva	10
Búsqueda de soluciones	8	Preocupación ansiosa	5	Búsqueda de soluciones	4	Búsqueda de soluciones	6	Preocupación ansiosa	4
Preocupación ansiosa	8	Tristeza	4	Refrenar afrontamiento	3	Tristeza	5	Refrenar afrontamiento	2
Aceptación	7	Búsqueda de soluciones	4	Preocupación ansiosa	3	Aceptación	5	Espíritu de lucha	2
Tristeza	7	Aceptación	4	Suicidio	3	Refrenar afrontamiento	4	Búsqueda de soluciones	
Refrenar afrontamiento	6	Refrenar afrontamiento	3	Tristeza	3	Preocupación ansiosa	4	Aceptación	2
Espíritu de lucha	4	Espíritu de lucha	2	Aceptación	3	Resignación	4	Tristeza	2
Resignación	4	Resignación	2	Pensamiento desiderativo	2	Pensamiento desiderativo	3	Anticipación	2
Pensamiento desiderativo	3	Expresión emocional-no	2	Resignación	2	Suicidio	3	Aceptación responsabil.	1
Suicidio	3	Evaluación positiva	1	Espíritu de lucha	2	Evaluación positiva	2	Negación	1
Expresión emocional-no	2	Espera	1	Desarrollo personal	2	Espíritu de lucha	2	Religiosidad	1
Evaluación positiva	2	Ansiedad	1	Esperanza	1	Expresión emocional-no	2	Desarrollo personal	0
Desarrollo personal	2	Pensamiento desiderativo	1	Anticipación	1	Confrontación	2	Pensam. desiderativo	0

5.4. Resultados IV: Comparación entre grupos teniendo en cuenta el género y la esperanza de vida (muerte prematura-muerte no prematura), de forma combinada.

5.4.1. Pregunta de investigación 5: ¿Es diferente el uso de estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados de manera combinada?

Hasta el momento, en esta tesis se ha analizado el uso de las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta las variables género de los progenitores y la esperanza de vida asociada a la enfermedad, por separado. Para analizar las respuestas de los participantes teniendo en cuenta las dos variables de manera combinada, se establecieron cuatro grupos: 1) hombres con hijos con enfermedad asociada a esperanza de vida reducida; 2) mujeres con hijos con enfermedad asociada a esperanza de vida reducida; 3) hombres con hijos con enfermedad asociada a esperanza de vida no reducida; 4) mujeres con hijos con enfermedad asociada a esperanza de vida no reducida. Como se puede observar en la tabla 16, la prueba Kruskal Wallis reveló la existencia de diferencias significativas en diferentes variables.

Por un lado, tanto las estrategias de autoculpación como la búsqueda de apoyo instrumental destacan en el grupo de madres con hijos con enfermedad no asociada a esperanza de vida reducida. Por otro lado, el grupo de madres con hijos con enfermedad vinculada a muerte prematura alcanzan puntuaciones significativamente superiores al resto de los grupos en el uso de la negación. Por último, son los hombres con hijos con menor esperanza de vida los que emplean en mayor medida las siguientes estrategias:

confrontación, desarrollo personal, supresión de actividades distractoras y psicología positiva.

Tabla 16. Cálculo de la Prueba de Kruskal Wallis para establecer diferencias significativas entre grupos combinando las variables género de los padres y esperanza de vida de los hijos.

Estrategia de afrontamiento	Grupo 1*	Grupo 2*	Grupo 3*	Grupo 4*	X^2	gl	*P*
Autoculpación	20.21	27.87	17.94	**34.38**	11.955	3	.008
Búsqueda apoyo instrumental	18.86	23.83	29.61	**32.25**	8.83	3	.032
Confrontación	**32.75**	28.17	16.72	20.29	9.76	3	.021
Desarrollo personal	**32.96**	20.73	18.67	27.88	9.67	3	.022
Negación	28.61	**33.77**	17.83	17.29	13.41	3	.004
Supresión activid. distractoras	**33.11**	23.77	23.22	20.50	11.72	3	.008
Psicología positiva	**34.68**	23.90	21.39	19.88	8.34	3	.039

Nota: *(Grupo 1= hombre + esperanza de vida reducida; Grupo 2= mujer + esperanza de vida reducida; Grupo 3= hombre + esperanza de vida no reducida; Grupo 4= mujer + esperanza de vida no reducida).

5.5. Resultados V: Relación entre las variables de afrontamiento y variables sociodemográficas

De cara al análisis de las estrategias de afrontamiento, se crearon tres nuevas variables que, a su vez, engloban variables relacionadas:

- Evitación total: evitación cognitiva, evitación comportamental, ocio, trabajo y refrenar afrontamiento.
- Distress total: fatiga, tristeza, ansiedad y salud.

- Total evaluación positiva: psicología positiva, desarrollo personal, espíritu de lucha y esperanza.

5.5.1. Pregunta de investigación 6: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género de los progenitores?

En este apartado se analiza la relación entre las diferentes estrategias de afrontamiento en el total de los participantes según el género. En este sentido, en el colectivo de hombres (tabla 17) destacan una serie de correlaciones estadísticamente significativas como se puede observar con la relación positiva entre la búsqueda de apoyo emocional y el espíritu de lucha. En contraste, la falta de apoyo emocional estuvo asociada con la presencia de respuestas paliativas y la falta de apoyo profesional con una menor esperanza y menor evaluación positiva.

Mientras que el uso de la comparación social hacia abajo está relacionado de manera directa con la psicología positiva, la comparación social hacia arriba está vinculada a una mayor confrontación, fatiga, tristeza; también la falta de expresión emocional, con el hecho de refrenar el afrontamiento y con mayor nivel de distress total.

El estilo confrontativo parece vinculado con la falta de expresión emocional, así como con la psicología positiva y el desarrollo personal. Este último concepto se halla asociado a su vez con el aumento de supresión de las actividades distractoras, la evaluación positiva y la búsqueda de apoyo profesional.

Otras variables también están asociadas positivamente a nivel significativo, tales como la autoculpación con suicidio, la resignación con la confrontación, la falta de expresión emocional y la evitación.

Por último, la evitación cognitiva se correlaciona de manera positiva con la culpación de otros, mientras que la evitación comportamental lo hace con la vivencia de ansiedad.

En cuanto al colectivo de mujeres (tabla 18), la búsqueda de apoyo emocional estuvo asociada al uso de la comparación hacia arriba y a una mayor evitación comportamental, pero a una menor evitación cognitiva. La expresión emocional estuvo vinculada a menor evitación cognitiva, mientras que la no expresión emocional lo estuvo con mayor referencia al suicidio.

Otras correlaciones destacadas son: la aceptación, con el mayor empleo de la anticipación, el desarrollo personal, la esperanza y la evaluación positiva; la comparación hacia abajo, con el hecho de refrenar afrontamiento y la psicología positiva; la confrontación, asociada con la fatiga y la tristeza; el distress total vinculado a la falta de expresión emocional, al futuro incierto y a la tendencia a refrenar el afrontamiento; y por último, la evitación total con la mayor percepción de tristeza y ansiedad.

Tabla 17. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de hombres (I)

	Aceptación	Anticipación	Autoculpación	Búsq.apoyo emocional	Falta apoyo emocional	Falta apoyo profesional	Búsqueda de soluciones	Otro hijo	Comparación hacia abajo	Comparación hacia arriba	Resignación	Confrontación	Culpación otros	Desarrollo personal	Fatiga	Tristeza	Ansiedad	Salud
Aceptación	1.00																	
Anticipación	-.00	1.00																
Autoculpación	-.16	-.11	1.00															
Búsq.apoyo emocional	.22	.34	-.08	1 .00														
Falta apoyo emocional	.05	.25	.24	.33	1.00													
Falta apoyo profesional	-.19	.23	-.23	.14	.04	1.00												
Búsqueda de soluciones	.03	-.08	.34	-.10	.06	-.39	1.00											
Otro hijo	.30	.18	-.14	-.24	-.22	-.03	-.02	1.00										
Comparación hacia abajo	.14	.01	.27	.12	.09	-.40	.36	-.01	1.00									
Comparación hacia arriba	.09	.03	-.10	.11	.10	-.29	-.01	.11	.32	1.00								
Resignación	.23	.49*	.18	.34	.28	.22	-.08	-.01	.10	.13	1.00							
Confrontación	.05	.22	.02	.39	.20	-.03	.08	-.01	.20	.51*	.44*	1.00						
Culpación otros	.08	.14	-.17	.16	.04	.59	.13	-.12	-.03	-.10	.18	.25	1.00					
Desarrollo personal	-.17	.27	.07	.24	.00	-.31	.16	-.28	.28	.28	.28	.73**	.05	1.00				
Fatiga	-.21	.04	-.33	-.18	-.06	-.27	-.00	.08	.16	.47*	-.06	-.05	.07	-.20	1.00			
Tristeza	-.15	-.01	.29	-.13	.13	-.14	-.15	.00	.04	.43*	.08	.30	-.27	. 25	.03	1.00		
Ansiedad	-.11	.01	.13	-.30	.74	.04	.10	.33	-.02	.19	.11	.28	.15	.20	.12	.39	1.00	
Salud	.16	.11	.25	-.00	.24	.14	-.02	.16	-.25	.31	.07	.05	.06	-.23	.16	.22	. 20	1.00
Espíritu de lucha	.16	-.13	-.19	.43*	.08	-.03	-.16	-.27	-.01	.35	.07	.35	.01	.24	.07	.18	-.16	.21
Esperanza	.23	.06	-.05	-.08	.10	-.45*	.03	.13	.23	.34	-.21	-.23	-.25	.00	.08	-.05	-.06	.25
Día a día	-.03	.04	.09	.19	-.16	.07	-.14	-.16	-.17	-.14	.19	.24	.25	.30	-.35	-.06	-.05	-.30
Evitación cognitive	-.08	.04	.40	-.13	.03	.33	.00	-.12	-.00	-.04	.36	.25	.46*	.09	-.06	.11	.23	.05
Evitación comportamental	.07	-.01	-.00	-.20	.12	.31	.01	.32	-.00	-.04	.28	.27	.29	-.01	-.00	.09	.66**	.00
Suicidio	-.02	-.21	.61*	-.17	.36	-.12	-.03	-.16	-.02	-.02	.09	.18	-.20	.11	-.37	.58**	.31	.19
Expresión emocional	.04	.08	.11	.30	.21	.11	-.15	.02	.16	.05	.17	.21	-.09	-.07	.02	.16	-.39	-.03
Expresión emocional no	.38	.24	-.06	.02	.29	.18	.06	.20	.11	.44*	.49*	.50*	.32	.19	.29	.14	.52*	.43*
Futuro incierto	.21	-.08	-.00	-.22	-.29	-.30	-.14	.36	.20	.09	-.03	-.38	-.48*	-.21	.25	.19	.02	.09
Preocupación ansiosa	.24	.33	.37	-.04	.19	.06	-.12	.44*	-02	-.08	.23	-.24	-.13	-.35	-.26	.23	.11	.39
Refrenar afrontamiento	-.21	-.07	.10	-.17	-.08	-.06	-.13	.07	-.04	.46*	.17	.32	.08	.26	-.09	.42*	.15	.13
Respuesta paliativa	.17	.13	.26	. 17	.54**	.19	-.02	.12	.03	.31	.39	.39	.10	-.05	.45	.47*	.31	.29
Supresión activid. distract.	.29	.21	-.10	.05	-.14	-.10	-.09	-.22	-.01	.18	.21	.23	.23	.41*	-.17	.18	-.06	.16
Psicología positiva	-.10	.19	.18	.25	-.04	-.40	.11	-.14	.49*	.33	.18	.61*	.05	.80*	-.18	.15	.02	-.25
Evitación Total	-.02	.13	.35	-.08	.15	.36	-.08	.11	.11	.03	.56**	.36	.40	.10	-.05	.21	.52*	.07
Distress Total	-.05	.12	.32	-.23	.16	-.06	-.02	.24	.12	.45*	.12	.22	-.09	.13	.19	.83**	.69**	.41*
Total Evaluación positiva	-.02	.11	.22	.35	.28	-.44*	.29	.02	.59**	.46*	-.04	.56**	-.14	.56**	.02	.12	.00	.04
Búsqueda apoyo profesion.	-.04	-.05	.24	-.15	.01	.06	.11	.07	.22	.01	.12	-.03	.28	.02	.21	-.19	.26	.11

Tabla 17 (continuación). Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de hombres (II)

	Espíritu lucha	Esperanza	Día a día	Evitación cognitiva	Evitación comportamental	Suicidio	Expresión emocional	Expresión emocional NO	Futuro incierto	Preocupación ansiosa	Refrenar afrontamiento	Respuesta paliativa	Supresión activ. Distract.	Psicología positiva	Evitación total	Distress total	Total evaluación positiva
Espíritu de lucha	1.00	.21	.36	.05	-.33	.11	.08	.08	-.08	-.15	.11	.24	.43*	.36	-.22	.08	.37
Esperanza		1.00	-.27	-.40	-.45*	-.12	-.16	.06	.39	.21	-.01	-.14	.27	.13	-.51*	.13	.30
Día a día			1.00	.58**	-.08	.04	-.03	-.12	-.29	-.11	.28	-.02	.36	.50*	.24	-.14	-.03
Evitación cognitive				1.00	.37	.44*	-.02	.28	-.28	.02	.40	.40	.28	.17	.79**	.21	-.18
Evitación comportamental					1.00	.34	-.20	.55**	-.30	.04	.13	.46*	-.14	-.21	.74**	.30	-.19
Suicidio						1.00	-.05	.14	-.06	.28	.27	.64**	.09	-.01	.42*	.54**	.02
Expresión emocional							1.00	-.10	-.01	-.07	-.20	.15	-.12	.05	.02	-.12	.21
Expresión emocional no								1.00	-.13	.03	.11	.46*	.24	-.00	.47*	.42*	.11
Futuro incierto									1.00	.29	-.29	-.15	-.04	-.09	-.28	.31	.01
Preocupación ansiosa										1.00	.20	.37	-.08	-.20	.15	.43*	-.14
Refrenar afrontamiento											1.00	.30	.39	.36	.32	.36	.03
Respuesta paliativa												1.00	.02	-.10	.50*	.56**	.05
Supresión activ. Distract.													1.00	.38	.04	.13	-.01
Psicología positiva														1.00	.07	.07	.67**
Evitación Total															1.00	.36	-.16
Distress Total																1.00	.12
Total Evaluación positiva																	1.00

Tabla 18. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de mujeres (I)

	Aceptación	Anticipación	Autoculpación	Búsq.apoyo emocional	Falta apoyo emocional	Falta apoyo profesional	Búsqueda de soluciones	Otro hijo	Comparación hacia abajo	Comparación hacia arriba	Resignación	Confrontación	Culpación otros	Desarrollo personal	Fatiga	Tristeza	Ansiedad	Salud
Aceptación	1.00																	
Anticipación	.39*	1.00																
Autoculpación	.19	.24	1.00															
Búsq.apoyo emocional	-.23	-.00	.19	1.00														
Falta apoyo emocional	-.10	-.37	.21	.16	1.00													
Falta apoyo profesional	-.38	-.38*	.16	-.06	.15	1.00												
Búsqueda de soluciones	.03	-.15	.25	.22	-.01	.15	1.00											
Otro hijo	.28	.26	.36	.19	-.00	-.20	.07	1.00										
Comparación hacia abajo	.36	.07	-.06	-.01	-.05	-.19	.07	.21	1.00									
Comparación hacia arriba	-.12	.11	.04	.46*	.00	-.24	.31	.19	.09	1.00								
Resignación	-.11	.02	-.12	.14	-.07	-.10	.01	-.09	.19	.13	1.00							
Confrontación	.20	-.27	-.17	.04	.29	-.10	.36	-.21	.28	.00	.03	1.00						
Culpación otros	-.02	.07	.00	-.01	-.12	-.43*	.13	-.08	-.16	.02	.05	.17	1.00					
Desarrollo personal	.41*	.08	.32	.11	.02	-.27	.34	.37	.10	-.06	-.14	.08	.14	1.00				
Fatiga	.29	-.26	.19	-.04	.20	.27	.35	-.28	-.02	-.24	.25	.54*	.12	.08	1.00			
Tristeza	-.03	-.11	-.27	.17	.26	-.10	-.15	-.14	-.08	.03	.06	.41*	-.21	-.02	.13	1.00		
Ansiedad	.00	-.02	.34	-.29	.10	.07	-.06	.26	-.14	-.02	.05	.00	.12	.05	.19	.18	1.00	
Salud	.06	.04	.16	-.15	.04	.22	.02	.14	-.15	-.18	.01	-.08	-.17	-.39*	.19	-.22	.21	1.00
Espíritu de lucha	.14	-.07	.02	.30	.29	-.13	.17	.20	.31	.23	.02	.32	-.10	.15	.07	.15	-.13	.08
Esperanza	.41*	.17	-.09	.10	-.13	-.34	.14	.12	.36	.27	-.16	.18	-.28	.16	-.10	.26	-.34	-.03
Día a día	.23	.01	-.01	-.27	.00	-.17	-.03	.21	.14	.27	-.16	-.03	.00	-.05	-.12	-.11	.22	-.09
Evitación cognitive	.14	.08	.38*	-47*	.14	-.01	-.24	.15	.00	-.07	.01	-.11	-.08	-.12	-.00	-.22	.47	.24
Evitación comportamental	-.71	-.14	.03	.53**	.23	-.19	.11	.28	.13	.49**	.44*	.10	-.02	-.03	-.03	-.12	.19	-.03
Suicidio	-.28	.00	.06	.06	.08	.23	-.13	-.03	-.16	.03	-.02	-.05	-.25	-.35	-.14	.29	.00	.11
Expresión emocional	.13	-.08	.08	.26	.15	.20	.22	-.03	-.12	.14	-.24	.19	.09	.27	.16	.24	-.29	.04
Expresión emocional no	.00	-.29	.07	.04	.44*	.04	.14	.07	.15	.27	-.11	.33	-.06	.07	.14	.38*	.34	-.04
Futuro incierto	.02	.19	.07	-.14	.32	.02	-.28	.16	.14	.11	-.08	-.03	-.26	-.16	-.23	.30	.18	-.13
Preocupación ansiosa	.03	.35	-.08	-.18	-.08	-.08	-.12	-.09	-.05	.29	.00	-.04	-.20	-.22	-.14	.12	.13	.07
Refrenar afrontamiento	.42*	.14	.41*	-.04	.23	.04	.18	.10	.45*	-.03	.22	.29	-.20	.25	.44*	.20	.13	.01
Respuesta paliativa	-.01	.07	-.07	-.21	.18	.16	-.41*	-.18	-.17	-.03	-.29	-.05	-.18	-.26	-.12	.25	.16	-.00
Supresión activid. distract.	-01	.07	.38*	-.20	.10	.26	.05	.18	-.05	.07	-.02	.10	-.15	-.21	.11	-.07	.35	.35
Psicología positiva	.00	.04	.02	-.09	-.06	-.37	-.03	.42*	.43*	.17	-.16	.14	-.14	.42*	-.06	.21	.09	-.28
Evitación Total	-.60	-.71	.38*	.03	.28	-.05	.10	.42*	-.01	.27	-.02	-.02	-.03	.05	.39	-.20	.54*	.22
Distress Total	.17	.11	.07	-.02	.26	-.07	-.12	.12	.06	.14	.34	.34	-.23	-.05	.29	.59*	.41*	.17
Total Evaluación positiva	.45*	.00	.01	-.08	-.00	-.29	-.19	.42*	.41	.10	.14	.14	-.17	.26	-.04	-.21	.17	-.19
Búsqueda apoyo profesion.	-.08	.41*	.06	-.26	-.19	.11	.20	.04	-.07	.06	-.19	-.19	-.06	.02	-.26	-.27	-.01	.05

Tabla 18 (continuación). Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de mujeres (II)

	Espíritu lucha	Esperanza	Día a día	Evitación cognitiva	Evitación comportamental	Suicidio	Expresión emocional	Expresión emocional NO	Futuro incierto	Preocupación ansiosa	Refrenar afrontamiento	Respuesta paliativa	Supresión actividades distrac.	Psicología positiva	Evitación total	Distress total	Total evaluación positiva
Espíritu de lucha	1.00	.14	.30	.00	.26	.34	.12	.33	.11	.25	.45*	.24	.38*	.23	.19	.19	.28
Esperanza		1.00	-.07	-.07	-.09	-.00	.02	.19	.16	.11	.16	-.15	.40*	-.25	.25	.25	.31
Día a día			1.00	.33	.15	.31	-.25	.29	.14	.13	.01	.08	.60*	.25	-.01	-.01	.46*
Evitación cognitive				1.00	-.11	.01	-.39*	-.06	.13	.37	.21	-.35	.47*	.20	.65**	.28	.05
Evitación comportamental					1.00	-.01	-.28	.22	.03	-.09	.00	-.10	-.09	.12	.41*	.02	-.29
Suicidio						1.00	.02	.50*	.44*	.12	.15	.42*	.21	.15	-.14	.13	.08
Expresión emocional							1.00	.18	-.11	-.20	-.07	.00	-.10	-.06	-.37	-.15	-.00
Expresión emocional no								1.00	-42*	.48	.25	.23	.07	.41*	-.00	.46*	-.12
Futuro incierto									1.00	.34	.36	.30	.36	.10	-.04	.41*	.05
Preocupación ansiosa										1.00	.29	-.10	.36	.11	.19	.54	.13
Refrenar afrontamiento											1.00	-.05	.34	.27	.18	.43**	.29
Respuesta paliativa												1.00	-.10	-.03	-.25	.07	-.03
Supresión activ. Distract.													1.00	-.07	.44	.34	-.00
Psicología positiva														1.00	.07	.28	.91*
Evitación Total															1.00	.22	.11
Distress Total																1.00	.41*
Total Evaluación positiva																	1.00

5.5.2. Pregunta de investigación 7: ¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta la esperanza de vida de los afectados?

Para los padres y madres con hijos con enfermedades que conllevan esperanza de vida reducida, se encontraron diferentes correlaciones significativas entre estrategias de afrontamiento.

Tal como se puede observar en la tabla 19, la falta de apoyo emocional se encuentra asociada de manera positiva con la confrontación y de manera negativa con la psicología positiva. Mientras que la falta de apoyo profesional estuvo asociada con un menor desarrollo personal y psicología positiva.

También se puede concluir que la comparación hacia abajo estuvo ligada a la evaluación positiva y la comparación hacia arriba con mayor nivel de confrontación, tristeza, espíritu de lucha, refrenar afrontamiento y psicología positiva.

Otras correlaciones que sobresalen en este colectivo son: la autoculpación y una mayor tendencia a la evitación cognitiva; la ansiedad, con la evitación cognitiva y con el deseo de tener otro hijo, la confrontación, con mayor tristeza, falta de expresión emocional y mayor uso de respuestas paliativas; el desarrollo personal, con mayor percepción de salud y mayor evaluación positiva.

En el caso de los padres y madres con hijos con enfermedades que no conllevan esperanza de vida reducida (ver tabla 20), los resultados indican que a mayor búsqueda de apoyo emocional, mayor desarrollo emocional, espíritu de lucha y expresión

emocional. Mientras que a mayor percepción de falta de apoyo emocional, mayor tristeza y tendencia a pensamientos suicidas. La falta de apoyo profesional, por su parte, estuvo asociada a menores niveles de esperanza. Por otra parte, a mayor expresión emocional, mayor desarrollo personal y menor ansiedad; mientras que la falta de expresión emocional se relacionó con ideas de suicidio.

Otras estrategias relacionadas entre sí de manera significativa fueron: la confrontación, positivamente asociada con el desarrollo personal, el espíritu de lucha y con menor tendencia a la evitación cognitiva y comportamental; el espíritu de lucha, asociada con menor ansiedad y con menor evitación cognitiva; la aceptación, con menor percepción de falta de apoyo profesional, mayor confrontación, mayor esperanza y evaluación positiva; y, por último, a mayor autoculpación, mayor búsqueda de apoyo emocional y de soluciones, así como mayor tendencia a la culpación de otros.

Tabla 19. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad conlleva esperanza de vida reducida (I)

	Aceptación	Anticipación	Autoculpación	Búsq.apoyo emocional	Falta apoyo emocional	Falta apoyo profesional	Búsqueda de soluciones	Otro hijo	Comparación hacia abajo	Comparación hacia arriba	Resignación	Confrontación	Culpación otros	Desarrollo personal	Fatiga	Tristeza	Ansiedad	Salud
Aceptación	1.00																	
Anticipación	.23	1.00																
Autoculpación	.12	-.01	1.00															
Búsq.apoyo emocional	-.01	.06	.17	1.00														
Falta apoyo emocional	.08	.02	.25	.47*	1.00													
Falta apoyo profesional	-.18	.06	-.00	.06	.03	1.00												
Búsqueda de soluciones	.00	-.13	.15	.14	.17	-.08	1.00											
Otro hijo	.16	.23	.21	.00	.03	.13	-.08	1.00										
Comparación hacia abajo	.16	.17	.23	.24	.23	-.25	.04	-.17	1.00									
Comparación hacia arriba	.05	.13	.01	.36	.16	-.34	.09	.30	.22	1.00								
Resignación	.34	.45*	-.00	.36	.27	-.09	-.22	.03	.20	.16	1.00							
Confrontación	.00	-.04	-.00	.33	.57*	-.07	.23	-.10	.14	.40*	.17	1.00						
Culpación otros	.02	-.03	-.22	.04	.09	.28	.18	-.21	-.02	-.00	.18	.15	1.00					
Desarrollo personal	.16	.10	-.01	-.07	.09	-.48**	.13	-.05	.12	.17	-.05	.31	-.06	1.00				
Fatiga	-.01	-05	.14	.14	.37	.33	.24	.07	.03	.17	.08	.21	.17	-.17	1.00			
Tristeza	-.15	-.07	-.02	.09	.10	-.16	-.02	.06	.02	.49*	.15	.43*	-.26	.04	.14	1.00		
Ansiedad	-.01	-.04	.32	-.02	.33	.13	.05	.43*	-.17	.03	.10	.26	.09	.22	.30	.26	1.00	
Salud	.15	.16	.36	.15	.28	.32	-.08	.31	-.18	-.03	.03	-06	-.05	-.44*	.29	-.03	.18	1.00
Espíritu de lucha	.05	-.00	.16	.22	.34	-.22	.07	.13	.28	.48*	-.04	.09	-.06	-.02	.00	.11	.00	.25
Esperanza	.23	.20	.10	.11	.04	-28	.10	-.00	.30	.34	-.21	-.09	-.30	.14	-.05	.15	-.34	.14
Día a día	.12	-.09	.04	-14	-.09	-.22	-.02	.11	-.01	.15	-.02	-.00	.10	.31	-.40*	-.07	.11	-.33
Evitación cognitive	.22	.08	.40*	-.15	.22	.20	-.27	.15	.03	-.12	.09	.08	-.01	.03	-.10	-.03	.27	.14
Evitación comportamental	.06	-.09	-.10	.28	.27	.03	-.13	.26	-.05	.21	.40*	.22	.23	.10	.18	.28	.58**	-.18
Suicidio	-.21	.01	.13	.05	-.02	-.19	-.18	.01	.16	.22	-.07	.16	-.27	.02	-.49**	.51**	.17	-.05
Expresión emocional	.08	-.16	.04	.21	.10	.15	.11	.05	.11	.20	-.05	.26	.11	-.30	.30	.26	-.05	.39*
Expresión emocional no	.27	.16	-.20	.19	.40*	-.10	.20	.16	.05	.51	.18	.59**	.26	.24	.06	.36	.32	.03
Futuro incierto	.04	.19	.21	-.40	.04	-.22	.07	.32	.10	.11	-.20	-.57	-.34	-.02	-.09	.22	.16	.01
Preocupación ansiosa	.10	.32	.21	.13	.13	.07	-.02	.37	-.00	.17	.30	-.07	-.15	-.32	-.08	.22	-.07	.38*
Refrenar afrontamiento	.08	.18	.26	-.14	.04	-.09	-.24	.20	.10	.41*	.08	.20	-.00	.21	.05	.18	.11	-.02
Respuesta paliativa	.11	.16	-.15	.09	.32	.00	-.18	.08	.14	.23	.26	.44*	-.00	.05	-.03	.37	.20	-.14
Supresión activid. distract.	.37	.17	-.00	-.36	-.04	-.08	-.18	-.07	-.13	.11	-.04	-.07	-.01	.13	-.20	.09	-.05	.03
Psicología positiva	.13	.05	.06	-.02	.02	-.44*	-.00	.20	.36	.42*	-.08	.13	-.16	.66*	-.30	.07	-.00	-.40*
Evitación Total	.16	.11	.31	.10	.42*	.17	-.23	.34	-.01	.11	.41*	.34	.09	.12	.04	.20	.57**	.06
Distress Total	-.08	.03	.34	.16	.35	-.09	.06	.25	-.08	.37*	.15	.35	-.18	-.08	.36	.75**	.64**	.42*
Total Evaluación positiva	.15	.10	.17	.28	.18	-.33	.03	.35	.41*	.44*	-.05	.13	-.31	.50*	-.05	.00	.01	-.14
Búsqueda apoyo profesion.	-.25	.29	.28	.05	.16	.30	.13	.07	.11	-.05	.08	-.08	.13	.02	-.65	-.04	.11	.22

Tabla 19 (continuación). Relación entre estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad conlleva esperanza de vida reducida (II)

	Espíritu lucha	Esperanza	Día a día	Evitación cognitiva	Evitación comportamental	Suicidio	Expresión emocional	Expresión emocional NO	Futuro incierto	Preocupación ansiosa	Refrenar afrontamiento	Respuesta paliativa	Supresión actividad. distract.	Psicología positiva	Evitación total	Distress total	Total evaluación positiva
Espíritu de lucha	1.00	.25	.49**	.24	.-.11	.31	-.01	.23	.16	.31	.36	.04	.23	.45*	.05	. 22	.41*
Esperanza		1.00	-.07	-.10	-.46*	.12	.07	.18	.25	.01	.01	-.03	.28	.29	-.34	-.01	.26
Día a día			1.00	.49*	.04	.30	-.32	.06	.06	.01	.39*	.10	.26	.69**	.28	-.01	.30
Evitación cognitiva				1.00	.06	.21	-.17	-.08	.08	.19	.48**	.30	.44*	.20	.74**	.22	.05
Evitación comportamental					1.00	.03	-.08	.41*	-.22	-.15	.04	.33	-.22	-.02	.59**	.34	.01
Suicidio						1.00	-.02	.26	.44*	.16	.07	.40	.21	.25	.19	.38*	.09
Expresión emocional							1.00	.16	-.04	.26	-.27	.09	-.29	-.13	-.05	.33	-.01
Expresión emocional no								1.00	.16	-.04	-.04	.49**	.15	.16	.23	.30	.07
Futuro incierto									1.00	.31	.07	.20	.35	.15	.02	.27	.09
Preocupación ansiosa										1.00	.23	.05	.14	-.00	.21	.42*	.01
Refrenar afrontamiento											1.00	.10	.43*	.35	.39*	.22	.12
Respuesta paliativa												1.00	.12	.03	.40*	.29	.05
Supresión activ. Distract.													1.00	.11	.21	.03	-10
Psicología positiva														1.00	.14	-.06	.76**
Evitación Total															1.00	.48*	.05
Distress Total																1.00	.01
Total Evaluación positiva																	1.00

Tabla 20. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad no conlleva esperanza de vida reducida (I)

	Aceptación	Anticipación	Autoculpación	Búsq. apoyo emocional	Falta apoyo emocional	Falta apoyo profesional	Búsqueda de soluciones	Otro hijo	Comparación hacia abajo	Comparación hacia arriba	Resignación	Confrontación	Culpación otros	Desarrollo personal	Fatiga	Tristeza	Ansiedad	Salud
Aceptación	1.00																	
Anticipación	.17	1.00																
Autoculpación	-.25	.25	1.00															
Búsq.apoyo emocional	-.20	.39	.47*	1.00														
Falta apoyo emocional	-.25	-.27	.28	.12	1.00													
Falta apoyo profesional	-.46*	-.30	.20	.18	.27	1.00												
Búsqueda de soluciones	-.02	.01	.47*	.03	-.07	-.11	1.00											
Otro hijo	.32	.19	.24	.16	-.16	-.35	.21	1.00										
Comparación hacia abajo	.38	-.03	-.06	-.08	-.15	-.26	.32	.49*	1.00									
Comparación hacia arriba	-.12	.08	.06	.21	-.06	-.13	.14	.06	.23	1.00								
Resignación	-.34	.02	.06	.13	-.11	.31	.17	-.17	-.01	-.07	1.00							
Confrontación	.44*	.23	-.13	.21	-.03	-.13	-.04	-.11	.20	-.34	.13	1.00						
Culpación otros	-.08	.51	.42*	.18	-.16	-.43*	.08	.12	-.26	-.06	-.05	.06	1.00					
Desarrollo personal	.16	.28	.35	.45*	-.09	-.09	.32	.20	.20	-.10	.21	.62**	.27	1.00				
Fatiga	.16	-.24	.05	-.20	-.17	.23	.09	-.35	.06	-.21	.07	.12	.00	.03	1.00			
Tristeza	.04	-.01	-07	.00	.45*	.01	-.22	-.15	.22	-.12	.06	.33	-.18	.17	.11	1.00		
Ansiedad	-.29	.11	.36	-.18	-.12	.05	-.02	.18	.05	.08	-.06	-.31	.20	-.12	-.07	.13	1.00	
Salud	-.20	.14	.29	.10	.05	.15	.03	.11	-.28	.04	.00	-.33	-.03	.28	-.01	.20	.32	1.00
Espíritu de lucha	.25	-.07	-.05	.53*	.07	.05	-.13	-.06	-.03	.00	.12	.52*	-.07	.40	.13	.20	-.44*	-.05
Esperanza	.51*	.02	-.37	-.28	-.19	-.52*	.05	.23	.32	.16	-.17	.09	-.24	.02	.00	.01	-.05	-.05
Día a día	.18	.19	-.20	-.37	-.02	.13	-.27	-.04	-.10	-.14	-.06	.06	-.00	-.11	-.07	-.16	-.14	-.15
Evitación cognitive	-.17	.14	.08	-.39	-.06	.03	-.14	-.13	-.23	-.05	.25	-.27	.30	-.10	-.06	-.02	.35	-.13
Evitación comportamental	-.08	.03	.19	.11	.14	.08	.20	.37	.08	.23	.25	-.31	-.13	-.28	-.34	-.27	.05	.14
Suicidio	-.09	-.26	.28	-.08	.52*	.36	-.03	-.22	-.31	-.34	.17	-.11	-.10	-.31	.11	.37	.10	.38
Expresión emocional	.06	.16	.30	.56**	.30	.22	.04	.01	-.10	-.27	-.08	.40	-.01	.60*	-.02	.12	-.43*	-.19
Expresión emocional no	.15	-.30	.11	-.26	.38	.49	-.20	.05	.11	-.03	.10	-.10	-.37	-.11	.24	.29	.19	.00
Futuro incierto	.27	-.12	-.31	-.12	-.02	-.13	-.40	.13	.39	.24	-.18	-.09	-.32	-.28	.20	.27	.09	-.06
Preocupación ansiosa	.06	.30	.02	-.19	.04	-.10	-.11	-.09	.03	.17	-.05	-.07	-.10	-.22	-.20	.24	.53**	.09
Refrenar afrontamiento	.12	.02	.35	.03	.26	.17	.27	-.05	.34	-.27	.25	.29	-.24	.28	.41	.63**	.12	.11
Respuesta paliativa	.10	-.03	.09	-.19	.34	.27	-.24	-.22	-.31	-.34	-.15	.11	-.18	-.31	-.08	.35	.22	.35
Supresión activid. distract.	-.05	.16	-.19	.35	-.20	.07	-.19	.05	-.14	-.16	.29	.41	-.08	.43*	-.16	.01	-.22	-.16
Psicología positiva	.63**	.10	-.18	-.20	-.06	-.38	-.13	-.10	.36	-.19	-.26	.39	-.01	.37	.06	.27	-.07	-.37
Evitación Total	-.37	.07	.34	-.00	-.07	-.18	.28	.24	.05	.18	.37	-.42*	.18	.01	-.23	-.21	.33	.04
Distress Total	.02	.20	.18	-.09	.19	-.13	-.17	.26	.20	.08	.00	.06	-.01	-.01	.07	.78**	.55**	.33
Total Evaluación positiva	.55*	-.00	-.22	-.33	.03	-.36	-.22	-.28	.34	-.21	-.27	.29	-.11	.15	.03	.32	.03	-.33
Búsqueda apoyo profesion.	.04	.09	.15	-.14	-.26	.02	.26	.20	.09	.25	-.23	-.02	.14	-.01	.22	-.33	.39	.17

Tabla 20. Relación entre las estrategias de afrontamiento en el colectivo de padres y madres con hijos cuya enfermedad no conlleva esperanza de vida reducida (II)

	Espíritu lucha	Esperanza	Día a día	Evitación cognitiva	Evitación comportamental	Suicidio	Expresión emocional	Expresión emocional NO	Futuro incierto	Preocupación ansiosa	Referenar afrontamiento	Respuesta paliativa	Supresión actived. distrac.	Psicología positiva	Evitación total	Distress total	Total evaluación positiva
Espíritu de lucha	1.00	.12	-.05	-.43*	-.03	.12	.27	.04	-.02	-.16	.18	-05	.42	.19	-.22	-.07	.09
Esperanza		1.00	-.22	-.33	.02	-.28	-.22	.18	.33	.29	.16	-.28	-.13	.38	-.35	.21	.40
Día a día			1.00	.37	-.09	.02	.04	.03	-.09	-.07	-.31	.08	.32	.44*	.13	-.30	.29
Evitación cognitive				1.00	.05	.15	-.32	.24	-.13	.25	-.14	.15	.01	.12	.61**	.13	-.13
Evitación comportamental					1.00	.32	-.35	.30	.01	.29	.02	.09	-.19	-.35	.50*	-.15	-.10
Suicidio						1.00	-.09	.45*	-.06	.23	.43*	.72**	-.10	-.13	.06	.06	-.35
Expresión emocional							1.00	-.10	-.17	-.46*	.14	-.05	.37	.20	-.35	.05	-.16
Expresión emocional no								1.00	.35	.27	.41	.29	-.20	.23	.10	.37	-.01
Futuro incierto									1.00	.20	.10	-.11	-.10	.21	-.33	.34	.04
Preocupación ansiosa										1.00	.31	.35	-.25	-.00	.16	.13	.01
Refrenar afrontamiento											1.00	.18	-.13	.14	-.06	.20	-.19
Respuesta paliativa												1.00	.35	.18	-.09	.24	-.05
Supresión activ. Distract.													1.00	-.13	.24	-04	-.26
Psicología positiva														1.00	.09	.05	-.13
Evitación Total															1.00	-.02	-.13
Distress Total																1.00	.09
Total Evaluación positiva																	1.00

5.5.3. Pregunta de investigación 8: ¿Afectan a las estrategias de afrontamiento la edad de los progenitores y la duración de la enfermedad?

En este apartado se analiza, por un lado, la relación que hay entre la descripción de las estrategias de afrontamiento, con variables sociodemográficas como la edad y el tiempo desde que se realizó el diagnóstico, por el otro, el efecto de los años transcurridos desde el diagnóstico en la evolución de diferentes estrategias de afrontamiento del estrés.

Con respecto al análisis de la relación entre afrontamiento, edad de los progenitores y años desde el diagnóstico, en el colectivo de hombres se encuentra una relación negativa significativa entre la edad y desarrollo personal (r_s = - .50, p = .015), así como una relación positiva entre los años desde el diagnóstico y la negación (r_s = .443, p = .034) y negativa con la resignación (r_s = - .44, p = .032). Por su parte, en las mujeres existe asociación positiva entre la edad y la dependencia emocional (r_s = .45, p = .018) y entre los años desde que se realizó el diagnóstico y la aceptación (r_s = .42, p = .028) y la búsqueda de apoyo profesional (r_s = .39, p = .040).

En cuanto al grupo de padres y madres cuyos hijos tienen una enfermedad con esperanza de vida reducida, los años desde que se hizo el diagnóstico estuvo asociado de manera negativa con la anticipación (r_s = - 39., p = .037) y positivamente con la medicación (r_s = .46, p = .013). Mientras tanto, en el colectivo de padres y madres con hijos sin esperanza de vida comprometida, hubo asociación negativa entre la edad y la resignación (r_s = - .48, p = .021) y positiva con la dependencia emocional (r_s = .52, p =

.013). También, entre los años diagnóstico y la búsqueda de soluciones (r_s = .49, p = .020) y la comparación social hacia abajo (r_s = .47, p = .026).

Para llevar a cabo un análisis de las diferencia entre grupos de padres y madres en relación a la edad de los mismos, se establecieron dos grupos de comparación homogéneos en cuanto al género y la esperanza de vida de sus hijos; el primero compuesto por los padres y madres menores de 40 años y el segundo por aquellos mayores de 41. Tras aplicar la prueba U de Mann Withney se observaron diferencias estadísticamente significativas en dos variables: la búsqueda de apoyo emocional y el desarrollo personal, obteniéndose mayor puntuación en el grupo de padres con edades inferiores a 40 años (ver tabla 21).

Tabla 21. Diferencia de medias según la edad de los padres y madres (Prueba U de Mann-Whitney)

Estrategia	Grupos por Edad	Rango promedio	U Mann-Whitney	*P*	*r*
Búsqueda apoyo emocional	Menores de 40 años (n=21)	**32.24**			
	Mayores de 41 años (n=29)	20.62	163	.004**	-.40
Desarrollo personal	Menores de 40 años (n=21)	**30.14**			
	Mayores de 41 años (n=29)	22.14	207	.030*	-.30

r= tamaño del efecto

Por otro lado, se procedió o al análisis de la evolución de algunas estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta los años transcurridos desde el diagnóstico. Se establecieron 5 grupos (tabla 22) a partir del total de la muestra: (grupo 1= 0-3 años desde el diagnóstico; grupo 2= 4-7 años; grupo 3= 8-11 años; grupo 4= 12-14 años; grupo 5= 15-16 años). Además, se realizaron análisis para establecer la homogeneidad de los cuatro grupos según esperanza de vida (muerte prematura/muerte no prematura) y según género (tablas 22 y 24). En las pruebas *Chi* cuadrado llevadas a cabo, los análisis

revelaron una significación superior a .05, revelando que los grupos son homogéneos en ambas variables (tablas 23 y 25).

Tabla 22. Frecuencias según esperanza de vida y años de diagnóstico

		Grupo según años desde diagnóstico					
		0-3	4-7	8-11	12-14	15-16	Total
Esperanza de vida	Muerte prematura	8	8	8	0	4	28
	Muerte no prematura	6	7	6	2	1	22
Total		14	15	14	2	5	50

Tabla 23. Pruebas de chi-cuadrado

	Valor	Gl	Sig. asintótica (bilateral)
Chi-cuadrado de Pearson	3.77	4	.438

Tabla 24. Frecuencias según género y años de diagnóstico

		Grupo según años desde diagnóstico					
		0-3	4-7	8-11	12-14	15-16	Total
Género	hombre	7	6	7	1	2	23
	Mujer	7	9	7	1	3	27
Total		14	15	14	2	5	50

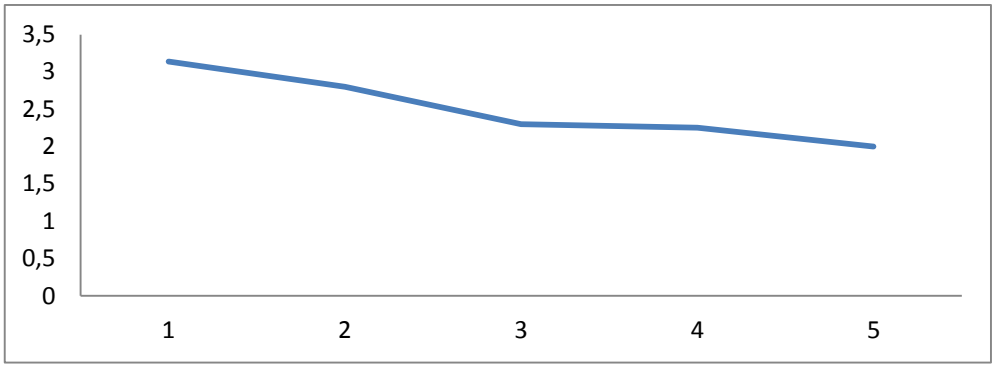
Tabla 25. Pruebas de chi-cuadrado

	Valor	Gl	Sig. asintótica (bilateral)
Chi-cuadrado de Pearson	.483	4	.975

Tras la comprobación de la homogeneidad de los cuatro grupos de comparación según esperanza de vida y género, se calcularon las frecuencias de diferentes estrategias de afrontamiento del estrés y de reacciones emocionales, tales como la búsqueda de apoyo emocional, búsqueda apoyo instrumental, búsqueda soluciones, apoyo profesional, confrontación, evitación cognitiva, expresión emocional, desarrollo personal, evaluación positiva, ansiedad y tristeza (figuras 7-17).

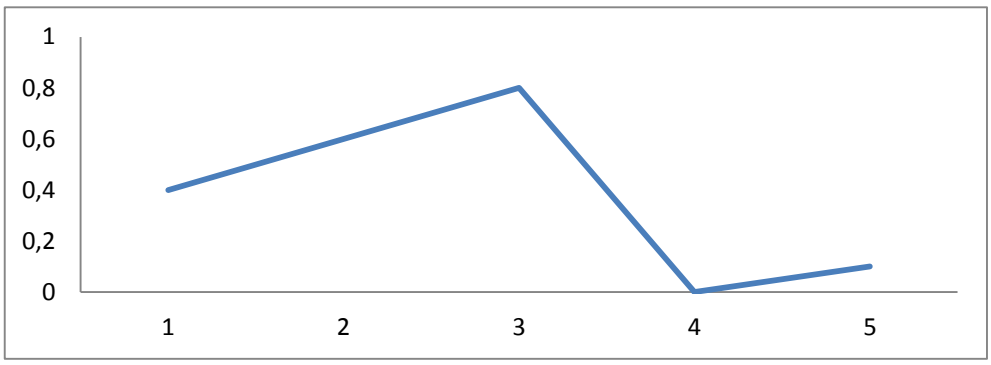
Por un lado, se puede observar que la estrategia de búsqueda de apoyo emocional muestra un patrón descendente (figura 7) y la tristeza, inicialmente asciende para luego descender (figura 13). Además, la tristeza es la única de las variables estudiadas que muestra diferencias significativas en relación a los años transcurridos desde el diagnóstico, siendo el grupo de 4-7 años desde el diagnóstico el que más puntuación refleja (X^2= 10.652; gl= 4; p= .03). Por otro lado, las demás estrategias, así como la ansiedad (figuras 8-17) reflejan una pauta marcada por ciclos de subidas y bajadas a lo largo de los años transcurridos desde el diagnóstico. Este hecho también es reflejado por los familiares a lo largo de las entrevistas: *"A la gente que no esté metida le explico que llegas a un estadio que es muy duro, te vas estabilizando, luego te llega otro golpe y caes abajo y en ese bajón te vuelves a estabilizar, otro golpe y caes otra vez, siempre a peor. Lo bueno sería ir a mejor, pero eso no sería lógico, es inviable. No tocas fondo nunca. Si el crío va para abajo, tú también. Duermo que te pasas, aunque por temporadas, hasta que te estabilizas en una fase mala. Mi teoría es que es una cuestión de tiempo. Ahora estamos en una etapa más o menos estable pero luego vendrá un bajón. Dentro de ese agujero hay diferentes etapas".*

Figura 7. Frecuencias búsqueda apoyo emocional según años desde el diagnóstico



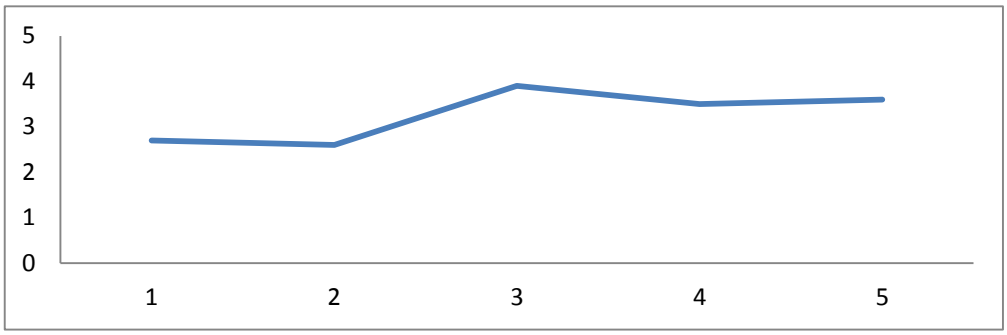
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 8. Frecuencias búsqueda apoyo instrumental según años desde el diagnóstico



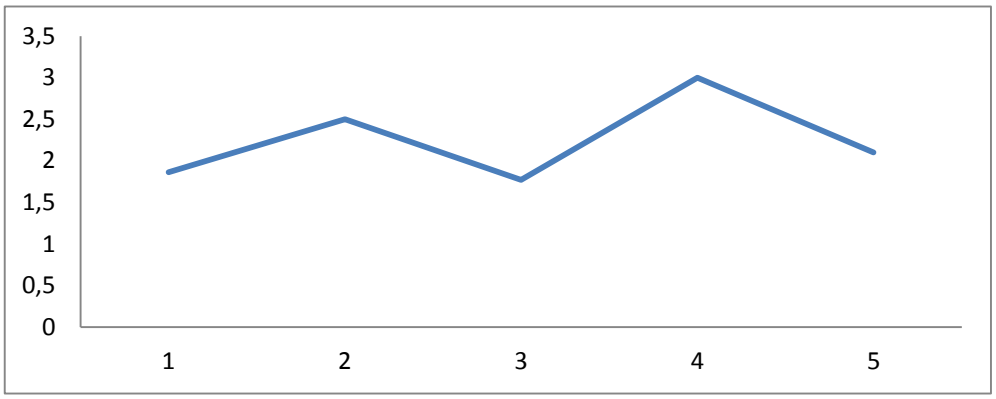
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 9. Frecuencias búsqueda soluciones según años desde el diagnóstico



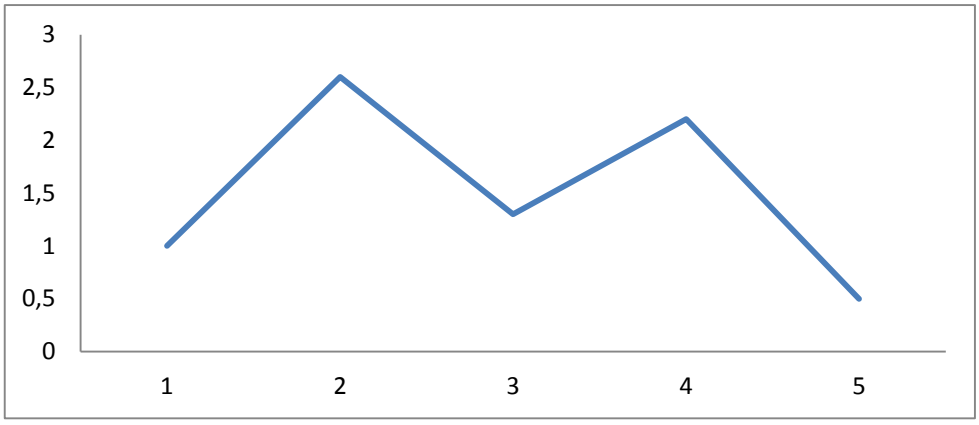
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 10. Frecuencias búsqueda apoyo profesional según años desde el diagnóstico



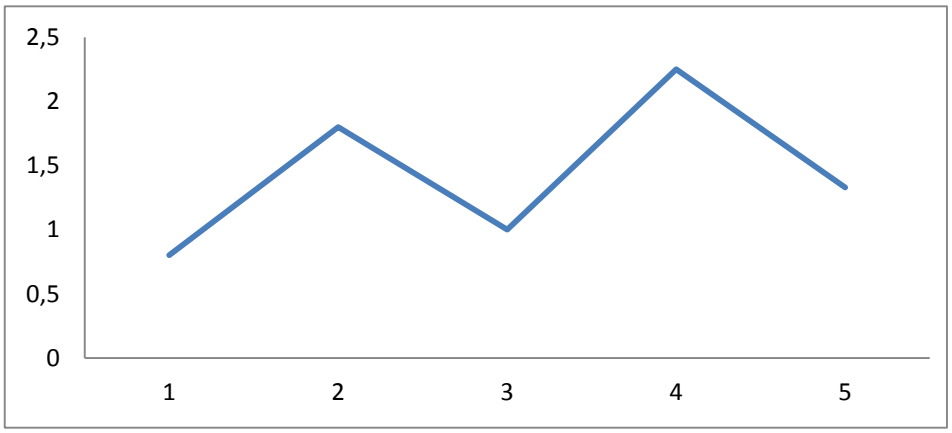
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 11. Frecuencias confrontación según años desde el diagnóstico



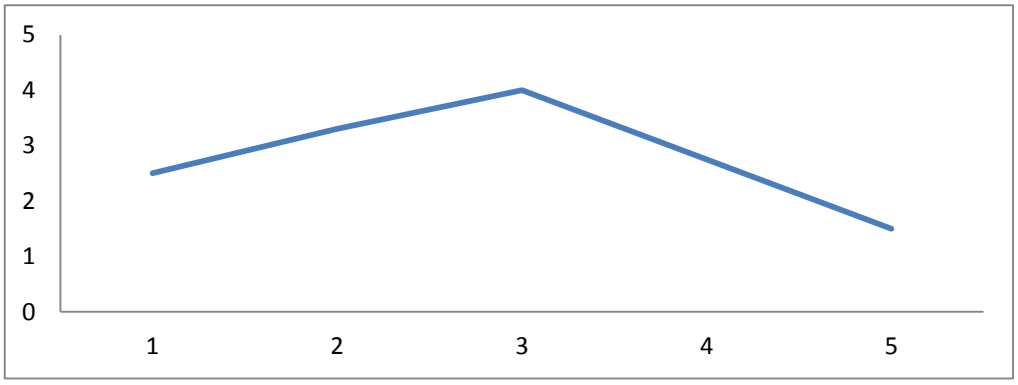
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 12. Frecuencias ansiedad según años desde el diagnóstico



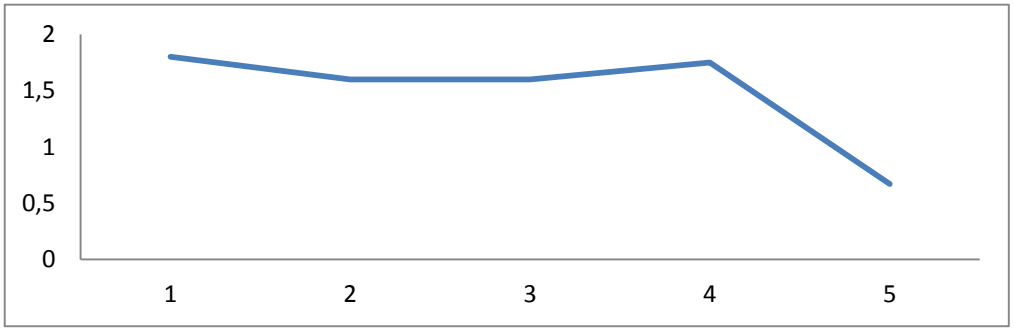
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 13. Frecuencias tristeza según años desde el diagnóstico



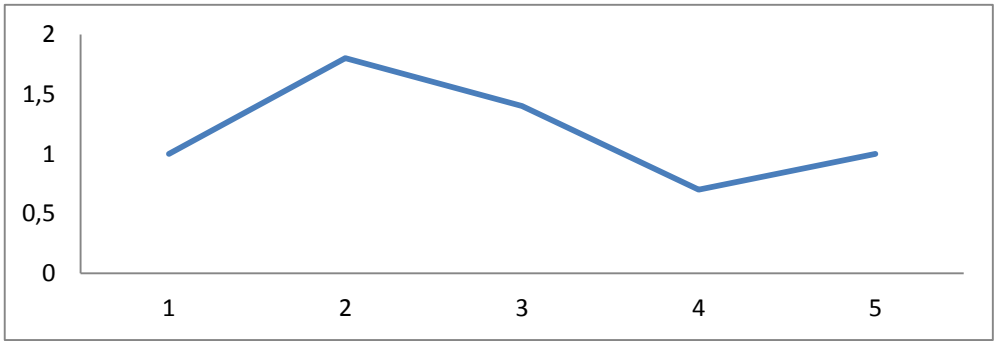
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 14. Frecuencias evitación cognitiva según años desde el diagnóstico



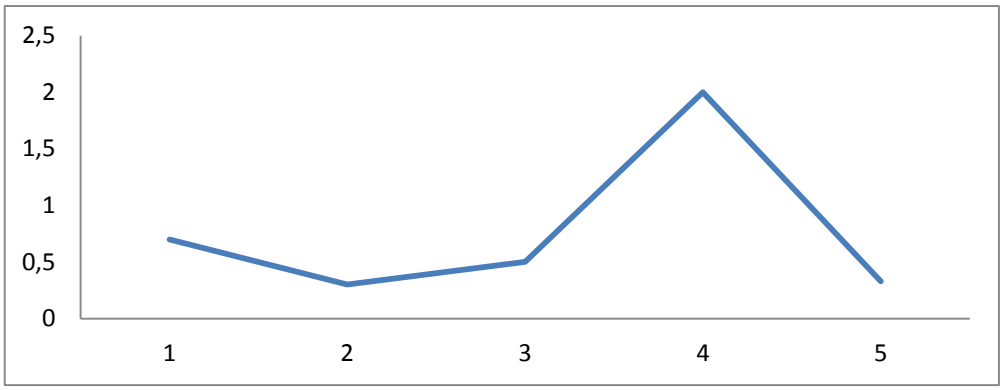
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 15. Frecuencias expresión emocional según años desde el diagnóstico



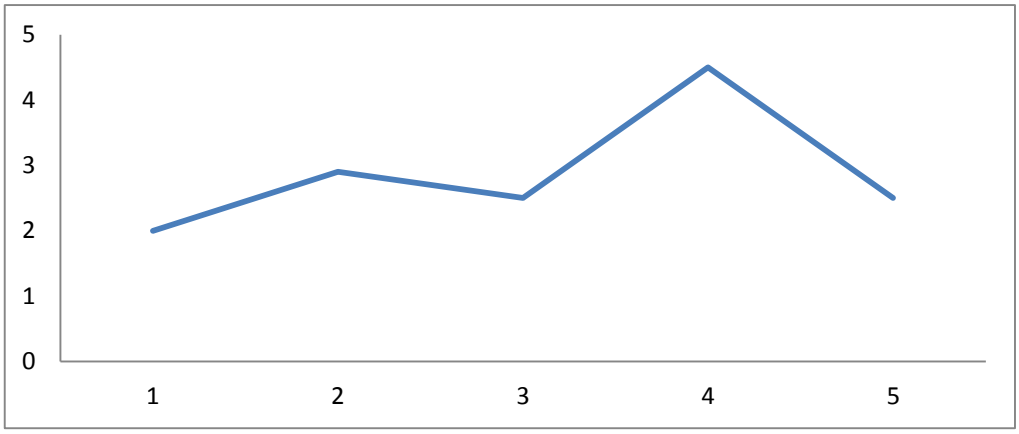
(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 16. Frecuencias desarrollo personal según años desde el diagnóstico



(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Figura 17. Frecuencias evaluación positiva según años desde el diagnóstico



(1= 0-3 años desde el diagnóstico; 2= 4-7 años; 3= 8-11 años; 4= 12-14 años; 5= 15-16 años).

Parte 3.

Discusión y conclusiones

CAPITULO 6

Discusión

La aparición de una enfermedad crónica en una familia supone una situación de crisis y un deterioro en la calidad de vida tanto del afectado como de los demás miembros. A lo largo de la literatura científica, podemos encontrar un gran apoyo al hecho de que los padres y madres con hijos/as con discapacidad experimentan estrés de manera continuada, afectando a las situaciones relacionadas con todos los aspectos de la vida familiar, incluyendo las demandas por el cuidado del afectado, el ámbito emocional, las dificultades interpersonales, los problemas financieros o las consecuencias en el ámbito social (Gupta y Singhal, 2004). Patterson y McCubbin (1983) describen diferentes fuentes de estrés que pueden experimentar las familias con un hijo con una enfermedad crónica: tensión en las relaciones familiares, modificaciones en las actividades y objetivos familiares, carga e incremento de tareas y de compromisos, incremento de la carga financiera, necesidad de adaptación del hogar en relación a las necesidades de movilidad del afectado o aislamiento social.

Ante una situación de crisis vital como la derivada de la presencia de un afectado por una enfermedad neuromuscular en la familia, los padres y madres experimentan actitudes negativas en relación a la enfermedad de sus hijos/as, lo que les lleva a experimentar sentimientos de pesimismo, culpabilidad, hostilidad, negación, pena, desesperanza, depresión o rechazo (Gupta y Singhal, 2004). Estas actitudes negativas afectan de manera adversa a los padres y madres, provocando efectos psicológicos como depresión, insatisfacción marital, inestabilidad emocional,

aislamiento social, tristeza crónica o niveles pobres de salud psicológica, así como trastornos de ansiedad generalizada (Chandorkar y Chakraborty, 2000).

Otros autores enfatizan que las personas pueden experimentar tanto sentimientos negativos como positivos en respuesta a la misma situación de estrés. La vivencia de emociones positivas facilita que la persona se sobreponga y utilice recursos de afrontamiento sociales, a la vez que ayuda a disminuir la influencia a largo plazo de los efectos de las emociones negativas. Estas emociones positivas incluyen un amplio rango de estados tales como serenidad, interés, esperanza, inspiración, amor, orgullo o diversión (Fredrickson, 2009).

El estrés experimentado y la respuesta de afrontamiento de los familiares pueden verse influenciados por variables específicas del afectado como la edad, el género o la duración de la enfermedad (Beresford, 1994).

El objetivo del presente estudio ha sido analizar las estrategias de afrontamiento del estrés utilizados por padres y madres de niños con enfermedades neuromusculares, teniendo en cuenta diferentes variables tales como la esperanza de vida de los hijos de los padres y madres entrevistados/as, el género, la edad de éstos últimos y los años transcurridos desde el diagnóstico. Todo ello, considerando el eje temporal: pasado-presente-futuro y la relación de pareja.

6.1. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el presente según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos: frecuencias y correlaciones

6.1.1. Diferencias según el género de los progenitores

En esta investigación, el estilo de afrontamiento más frecuentemente descrito por los hombres en relación al momento presente es la búsqueda y planificación de soluciones. En el caso de las mujeres, el primer estilo de afrontamiento más descrito a nivel significativo es la búsqueda de apoyo emocional. En segundo lugar, la búsqueda y planificación de soluciones, aunque en esta ocasión las diferencias no son significativos a nivel estadístico.

Estos resultados corroboran parcialmente la hipótesis 1.1 que afirma que "las madres entrevistados/as utilizarán más las estrategias de afrontamiento basadas en la emoción que las estrategias de afrontamiento centradas en el problema". El hallazgo va en la misma línea que los estudios que afirman que las mujeres buscan en mayor medida apoyo social emocional en comparación con los hombres (Ptacek et al., 1992; Clarke et al., 2009). Además, las mujeres son más propensas a buscar y recibir apoyo social en los miembros de la familia y en los amigos, mientras que los hombres se centran en una persona, principalmente en su cónyuge (Trute et al., 2008).

Aunque en este estudio se encuentra diferencias significativas en relación a la búsqueda de apoyo emocional según el género, la estrategia de búsqueda de soluciones está presente de igual manera tanto en hombres como en mujeres, no existiendo

diferencias significativas en cuanto a su empleo. Generalmente, la literatura científica destaca que los hombres tienen mayor probabilidad de emplear estrategias centradas en el problema, mientras que las mujeres buscan en mayor medida apoyo social emocional (Ptacek et al., 1992; Clarke et al., 2009). En estos estudios se afirma que los hombres se socializan para afrontar la situación desde un punto de vista instrumental y las mujeres, por su parte, tienden a socializarse con el objetivo de expresar emociones y buscar apoyo emocional en los demás (Ptacek et al., 1992).

Otros estudios, sin embargo, no encuentran evidencias de que los hombres tiendan a utilizar en mayor medida estrategias de afrontamiento centradas en el problema. En esta línea, el meta-análisis que llevaron a cabo Tamres et al. (2002) analizó 50 estudios que valoraron la influencia del género en 17 estrategias de afrontamiento, revela que las mujeres utilizan con frecuencia similar o incluso en mayor medida que los hombres todas las estrategias de afrontamiento, incluyendo tanto estrategias centradas en la emoción, como en el problema.

Los resultados de la tesis apuntan en la misma dirección en el sentido de que hacen referencia a que no existe una diferencia tan marcada entre hombres y mujeres en el uso de estrategias centradas en la búsqueda de soluciones ante el afrontamiento de una situación como la generada por la presencia de un afectado por enfermedad neuromuscular.

A nivel correlacional y en respuesta a la pregunta de investigación número 6 "¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta el género?", en el colectivo de hombres se puede observar la relación positiva entre la

búsqueda de apoyo emocional y el espíritu de lucha. En contraste, la falta de apoyo emocional estuvo asociada con la presencia de respuestas paliativas y la falta de apoyo profesional con una menor esperanza y menor evaluación positiva. En cuanto al colectivo de mujeres, la búsqueda de apoyo emocional estuvo asociada al uso de la comparación hacia arriba y a una menor evitación cognitiva.

El segundo estilo relatado por los hombres es la evaluación positiva y, en el caso de las mujeres este tipo de afrontamiento se encuentra en tercer lugar la frecuencia, no existiendo diferencias significativas según el género, a semejanza del estudio de Zlomke y Hahn (2010). En el presente estudio la evaluación positiva estuvo significativamente asociada con la aceptación, indicando que las experiencias emocionales de aceptación y la evaluación positiva están relacionadas con un funcionamiento psicológico más adaptativo (Zomke y Hahn, 2010.

El uso de la evaluación positiva hace que la persona preste atención al evento negativo, pero también que sea capaz de reconocer los aspectos positivos y sus consecuencias. Este tipo de afrontamiento facilita mantener el foco en los aspectos emocionales de la situación, reinterpretando dichos aspectos, más que ignorándolos (Folkman y Mokowitz, 2000; Shiota y Levenson, 2009).

Diferentes estudios han demostrado que, ante la presencia de una enfermedad como el cáncer o una discapacidad en un hijo, las personas son capaces de percibir beneficios de la experiencia (Sears et al., 2003), especialmente en relación al apoyo social y a las relaciones con los demás. En el mismo sentido, se han identificado diferentes factores asociados con la percepción positiva ante situaciones de dificultad

como, por ejemplo, la vivencia de los hijos como fuente de alegría, amor y de orgullo o como estímulo para el crecimiento, satisfacción en proveer cuidados al hijo/a, compartir amor con su hijo/a, fortalecimiento de la familia, sensación de tener un propósito vital, incremento de la red social o vivencia al máximo de cada día (Behr et al., 1992; Hastings y Taunt, 2002).

Por otro lado, a lo largo de las entrevistas se encuentran múltiples referencias a expresiones emocionales relacionadas con la ansiedad, la tristeza y los problemas de salud, especialmente, y, de forma significativa, en el grupo de madres, en comparación con los padres. Estas reacciones emocionales estuvieron positivamente asociadas a nivel significativo con las siguientes variables: evitación, confrontación, falta de expresión emocional y futuro incierto. Estos resultados apoyan la hipótesis 1.2. "Las madres entrevistados/as experimentarán mayor nivel de distress que los padres". Similar tendencia se ha observado en otros estudios con colectivos de madres con hijos con enfermedades degenerativas (Yeh, 2002; Al-Gamal y Long, 2010).

6.1.2. Diferencias según la esperanza de vida de los afectados

En relación a la esperanza de vida, todo el grupo de padres y madres expresan en primer lugar la estrategia de búsqueda y planificación de soluciones. La búsqueda de apoyo emocional destaca entre las tres primeras estrategias descritas en ambos grupos (esperanza de vida reducida y esperanza de vida no reducida). A nivel correlacional y en respuesta a la pregunta de investigación número siete "¿Cómo se relacionan entre sí las estrategias de afrontamiento teniendo en cuenta la esperanza de vida de los afectados?", los resultados indican que a mayor búsqueda de apoyo emocional, mayor desarrollo

personal, espíritu de lucha y expresión emocional. Por otra parte, a mayor percepción de falta de apoyo emocional, mayor tristeza y tendencia a pensamientos suicidas.

También se puede comprobar que la estrategia de afrontamiento basada en la búsqueda de apoyo instrumental es significativamente más empleada en el grupo con enfermedades que no conllevan muerte prematura, especialmente en las madres. Estos datos apoyan la hipótesis 2.1. "Los padres y madres entrevistados/as cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida menor, emplearán en mayor medida estrategias de afrontamiento basadas en la emoción que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una enfermedad no asociada a muerte prematura".

Con respecto a este último hallazgo, autores como Compas, Malcarne y Fondacaro (1988) o Lazarus (1993) afirman que el empleo de estrategias de afrontamiento centradas en el problema es más beneficioso en aquellas situaciones percibidas como controlables. Por otro lado, el uso de estrategias centradas en la emoción es más eficaz cuando las situaciones se perciben como incontrolables. Es decir, proponen que el afrontamiento depende de la interpretación de lo que puede hacerse para cambiar la situación. Si la interpretación implica que se puede hacer algo, predominarán las estrategias de afrontamiento dirigidas hacia el problema, mientras que si la interpretación implica que no se puede hacer nada, predominarán las estrategias centradas en la emoción.

En el caso de los familiares con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura, es probable que la situación se interprete como incontrolable, por lo que el empleo de estrategias de afrontamiento basados en el apoyo instrumental se dan en

menor medida que en el colectivo de padres que perciben un mayor control sobre las consecuencias derivadas de la enfermedad de sus hijos.

Por su parte, la evaluación positva aparece entre las cuatro estrategias de afrontamiento más mencionadas en ambos grupos de padres atendiendo a la esperanza de vida, tal y como sucedía en el caso de la variable género. Es reseñable la presencia de diferencias estadísticamente significativas que reflejan un mayor uso de la evaluación positiva en el caso de los padres y madres con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura. Esta diferencia puede deberse al hecho de que este colectivo de padres y madres, en respuesta a la situación que supone la muerte a corto plazo de su hijo, son capaces de para mantener un nivel psicológico y físico relativamente estable (Bonanno et al., 2005).

Katz (2002) observó resultados similares al comparar un grupo de padres y madres con niños atendiendo a la presencia o no de enfermedad asociada a muerte prematura. Concretamente, el primer grupo de progenitores percibían de forma significativa un mayor impacto positivo de la enfermedad de sus hijos. A pesar de la severidad de las enfermedades, los padres y madres eran capaces de encontrar aspectos positivos de la situación y del impacto en sus vidas. Estos datos se pueden interpretar desde la Teoría de la Resiliencia que defiende que los individuos que muestran esta capacidad no evitan simplemente las consecuencias negativas ligadas a los riesgos, sino que muestran una correcta o mejor adaptación a la adversidad, implicando habilidades interpersonales, fuerza y recursos psicológicos que les capacitan para responder ante los retos (Cowanet al., 1996; Rutter, 1987).

Otro punto de vista, defendido por Katz (2002) atribuye estas diferencias al hecho de que los padres y madres con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura, especialmente las madres, pueden tener una tendencia a desdramatizar la gravedad de la situación y de las consecuencias de la enfermedad. En este sentido, cabe resaltar las diferencias significativas que se encuentran en esta tesis con respecto a la negación, especialmente en el grupo de madres con hijos con enfermedad relacionada con muerte prematura. En este mismo colectivo, además, hay una correlación positiva entre la negación y el desarrollo personal.

Es posible que, en nuestro caso, la negación tenga como objetivo aliviar, minimizar o evitar el reconocimiento de una realidad dolorosa, reduciendo el efecto emocional y combatiendo sentimientos de indefensión y desamparo (Livneh, 2009), así como disminuyendo la percepción de las implicaciones derivadas de la enfermedad (Amayra, 2000; Aldebot y Weisman, 2009). Permite a la persona tener un tiempo para aceptar y reconocer la situación de manera gradual y manejable (Siemerink et al., 2011), así como mantener la esperanza y el optimismo (Kortte, Weneger y Chwalisz, 2003). De otro modo, la conciencia del estresor puede conllevar efectos negativos en algunos casos, ya que puede incrementar la desmoralización, sentimientos depresivos o intentos de suicidio.

Por su parte, la confrontación es mayor en el grupo de hombres con hijos con enfermedades cuya esperanza de vida se haya reducida. Estos resultados están en línea con la literatura científica que defiende que los hombres utilizan en mayor medida estrategias de afrontamiento centradas en el problema en situaciones de estrés (Clarke et al., 2009). Además, tal y como apunta el estudio de Penley et al. (2002), los resultados

obtenidos reflejan correlaciones significativas entre el uso de la confrontación y la tristeza y la falta de expresión emocional.

Con respecto a la autoculpabilidad, a menudo los padres y madres experimentan actitudes negativas en relación a la enfermedad de sus hijos/as, lo que les lleva a experimentar este tipo de sentimientos (Gupta y Singhal, 2004). En este estudio, la autoculpabilidad es experimentada en mayor medida por las madres de niños con enfermedades con esperanza de vida no reducida.

Para entender este concepto hay que tener en cuenta el fuerte componente genético existente en este tipo de enfermedades. Autores como Moses (2010) afirman que la circunstancia de que la enfermedad tenga un patrón hereditario ligado al cromosoma X, contribuye a que surjan sentimientos de autoculpabilidad. Este hecho contrasta con la teoría atribucional de Weiner (1986), que predice que la causa genética de una enfermedad puede aliviar los sentimientos de autoculpabilidad atendiendo a causas externas e incontrolables.

En esta tesis, son las madres con hijos con enfermedades menos asociadas a la herencia ligada al cromosoma X, las que más culpabilidad experimentan. Este resultado puede estar mediado por la correlación positiva entre la evitación cognitiva y la autoculpación observada en el grupo de madres con hijos con muerte prematura. Si tenemos en cuenta que, en este grupo de madres, se da un mayor uso de la estrategia de negación a nivel significativo, una posibilidad es que estas madres eviten a nivel cognitivo la percepción de autoculpabilidad.

En relación a la supresión de actividades distractoras, parece más probable que los hombres afronten sentimientos depresivos por medio de la distracción, como por ejemplo practicando deportes, involucrándose en hobbies o a través del abuso de sustancias. Las mujeres emplean en mayor medida estrategias de afrontamiento centradas en la emoción: llorar, buscar apoyo social o reflexionar sobre las causas e implicaciones de su depresión (Angst et al., 2002). En este estudio son los hombres que tienen un hijo con una enfermedad que conlleva esperanza de vida reducida, los que más hacen referencia a la supresión de actividades distractoras.

En relación a la hipótesis 2.2 que afirma que "Los padres y madres entrevistados/as cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida menor, experimentarán un mayor nivel de distress que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una enfermedad no asociada a muerte prematura" los resultados obtenidos no la confirman, ya que no se encontraron diferencias estadísticamente significativas en cuanto a la percepción de ansiedad o tristeza, teniendo en cuenta la esperanza de vida de los afectados.

6.2. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el momento del diagnóstico según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos

La vivencia que con mayor frecuencia se describe por el total de familiares entrevistados en relación con el diagnóstico es la tristeza y la sensación de falta de apoyo profesional. Estas sensaciones acompañan al total de la muestra, independientemente del género o de la esperanza de vida de sus afectados. El momento del diagnóstico es uno de los periodos más estresantes que experimentan los padres,

acompañado de sentimientos de shock, enfado, confusión, tristeza y miedo (George, Vickers, Wilkes y Barton, 2007).

Aunque la búsqueda de apoyo profesional destaca entre las primeras estrategias activas de afrontamiento, la percepción de falta de apoyo profesional adquiere una gran importancia en el momento del diagnóstico. Los pacientes con enfermedades crónicas, a menudo expresan más actitudes negativas que positivas hacia el entorno médico, al que perciben como poco inteligible, sintiendo que no les toman en serio, lo que facilita sentimientos de frustración y enfado (George et al., 2007). Esto puede facilitar que los pacientes no confíen en sus médicos y experimenten sentimientos de frustración y enfado (Dhaliwal y Hunt, 2004).

Diferentes estudios han mostrado que una buena comunicación médico-paciente puede mejorar la salud del paciente, ejerciendo una influencia positiva no solo en la salud emocional sino en la mejora de síntomas, en el estado funcional y en el control del dolor (Stewart, 1995). Este autor propone que los médicos y personal sanitario no solo deben dar respuesta a los aspectos físicos de los pacientes, sino que también debe atender a sus preocupaciones y sentimientos. Por su parte, Green y Murton (1996) destacan una serie de variables relacionadas de manera significativa con el nivel de satisfacción de padres y madres a la hora de recibir la noticia de que sus hijos tienen un diagnóstico de distrofia muscular de Duchene. Entre ellas se encuentran: la comprensión y recuerdo de lo que se ha dicho, la información adecuada, un nivel educativo alto tanto del padre como de la madre y la presencia de ambos miembros de la pareja.

En la presente tesis no se obtienen correlaciones significativas entre la percepción de falta de apoyo profesional y variables sociodemográficas como la edad o en nivel educativo de los progenitores. Sin embargo, sí que se encuentran asociaciones entre esta variable y la falta de esperanza, así con menores afirmaciones relacionadas con la evaluación positiva. Esta línea encaja con el estudio de Schenker, Stewart, Na y Whooley (2009) en el que se sugiere que la percepción de la comunicación entre doctor paciente puede reflejar parcialmente el estado psicológico de la persona, especialmente estados depresivos.

El uso de la negación en el momento del diagnóstico destaca especialmente en el colectivo de mujeres, tanto en grupo con enfermedades que conllevan muerte prematura como las que no. La negación se refleja mediante diferentes aserciones. El análisis efectuado con la prueba U de Mann-Whitney refuerza estas diferencias entre género a nivel estadístico (U= 399; p= .027), pudiéndose observar que es el colectivo de mujeres el que presenta mayor nivel de negación en el momento del diagnóstico.

Según diferentes autores (Amayra, 2000; Livneh, 2009; Aldebot y Weisman, 2009) la negación puede referirse, por un lado, a la ausencia de aceptación de los hechos (existencia de enfermedad) y, por el otro, a la negación de las implicaciones derivadas de la enfermedad. Puede ser útil de cara a la adaptación si permiten al individuo mantener su equilibrio emocional para llevar a cabo estrategias de afrontamiento centrado en el problema (Cooke, Myers y Derakshan, 2003), sobre todo en las primeras fases siguientes al diagnóstico (Livneh et al., 2009). De este modo, permite a la persona tener un tiempo para prepararse para aceptar y reconocer la situación de manera gradual y manejable (Siemerink et al., 2011), así como mantener la esperanza y el optimismo

(Kortte, Weneger y Chwalisz, 2003). De otro modo, la conciencia del estresor puede conllevar efectos negativos en algunos casos ya que puede incrementar la desmoralización o sentimientos depresivos. (Lewis, 2004).

Al contrario que en la literatura científica (Kazak y Nachman, 1991, Tamres et al., 2002; Wade et al., 2002) donde se indica la tendencia en el colectivo masculino en el uso de la negación, el presente estudio refleja que son las mujeres las que más aluden a esta esta estrategia, en el momento del diagnóstico y, como se ha descrito en el apartado anterior, en la vivencia relacionada con el presente.

6.3. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con la relación de pareja según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos

Las situaciones generadoras de grandes niveles de estrés pueden ejercer una influencia negativa en las relaciones de pareja. Las madres afirman que, a pesar de que la relación con su pareja es fuerte, la enfermedad del hijo debilita la conexión y la energía física y emocional de los miembros de la pareja (Lavee y May-Dan, 2003). Las situaciones de enfermedad grave pueden conllevar dificultades en las relaciones entre los miembros de la pareja, incluyendo procesos de divorcio o separación (Monterosso, Kristjanson, Aoun y Phillips, 2007).

Los resultados reflejados en este estudio muestran que tanto los hombres como las mujeres eligen la búsqueda de apoyo emocional entre las primeras estrategias. Sin embargo, la sensación de falta de apoyo emocional destaca especialmente en el colectivo de mujeres, confirmándose a nivel estadístico. En otros estudios, también se

ha evidenciado la percepción que tienen los miembros de la pareja, especialmente las madres, con respecto a la falta de apoyo emocional por parte de su pareja (McCubbin et al., 2002, Yeh, 2002).

Otra diferencia que llama la atención es el empleo de la expresión emocional en relación al género. Concretamente, los hombres hacen alusión a la falta de expresión emocional el mismo número de veces que las mujeres aluden a la expresión emocional como estrategia de afrontamiento relacionada con la pareja. En cuanto al colectivo de mujeres, la expresión emocional estuvo vinculada a menor evitación cognitiva, mientras que la no expresión emocional lo estuvo con mayor referencia al suicidio.

En este sentido, la mayor parte de los estudios subrayan que las mujeres son más propensas a expresar sus emociones y a buscar apoyo social emocional en comparación con los hombres (Ptacek et al., 1992; Zakowski et al, 2003; Clarke et al., 2009). Las mujeres emplean en mayor medida estrategias de afrontamiento centradas en la emoción como llorar, buscar apoyo social o reflexionar sobre las causas e implicaciones de su estado emocional (Angst et al., 2002). Según Ptacek et al., (1992) las mujeres tienden a socializarse con el objetivo de expresar emociones y buscar apoyo emocional en los demás. La falta de comunicación derivada de la carga física y psicológica generada por una enfermedad grave puede afectar de manera negativa las relaciones de pareja (da Silva, Jacob y Castanheira, 2010). La comunicación es considerada en la literatura científica como un factor clave que afecta a las relaciones maritales y que ayuda a rebajar la carga asociada a la enfermedad (Lavee y May-Dan, 2003; Shapiro).

Por otra parte, hay que tener en cuenta que para los padres y madres, el hecho de hablar sobre aspectos relacionados con la posible muerte de sus hijos supone un estresor muy importante, que puede conllevar a evitar situaciones de comunicación, tanto con su pareja como con los propios hijos afectados o sus hermanos (Young, Dixon-Woods, Windridge y Heney, 2003).

A nivel correlacional, Steffen y Castoldi (2006), por su parte, afirman que a mayor nivel de estrés, mayor probabilidad de que aparezcan problemas de comunicación, tanto a nivel verbal como no verbal. En relación a nuestro estudio, tanto en el colectivo de madres como de padres puede observar una relación significativa positiva entre la falta de expresión emocional y el distress (Hoyt, 2009).

Otras estrategias destacadas con respecto a la relación de pareja son, por un lado, el desarrollo personal y, por otro lado, la búsqueda y planificación de soluciones. En primer lugar, el desarrollo personal en relación a la pareja, experimentado en mayor medida por los hombres, acrecienta la sensación de que los lazos se han hecho más fuertes a raíz de la enfermedad y la percepción de sufrimiento en ausencia del otro (Mccubbin et al., 2002). En segundo lugar, y con respecto a la planificación de soluciones, ambos miembros de la pareja enfatizan la importancia de trabajar en conjunto, como equipo, compartiendo estrategias para manejar las diferentes situaciones que van apareciendo en el transcurso de la enfermedad (McCubbin et al., 2002; Ow, 2003).

Si tenemos en cuenta las estrategias relacionadas con la relación de pareja empleadas por el grupo de padres y madres con hijos con enfermedades que conllevan

muerte prematura, destacan entre las primeras: la falta de expresión emocional, la búsqueda de apoyo emocional y la falta de apoyo emocional. A continuación, este colectivo de padres y madres describen otras estrategias tales como la búsqueda de soluciones y la expresión de emociones.

Los padres y madres con hijos con enfermedades que no comprometían la esperanza de vida, describen con mayor frecuencia el empleo de las siguientes estrategias de afrontamiento: búsqueda de apoyo emocional, falta de apoyo emocional, búsqueda de soluciones y expresión emocional.

Si analizamos los datos obtenidos de los participantes con la prueba no paramétrica U de Mann-Withney, según la esperanza de vida asociada a la enfermedad (muerte prematura-muerte no prematura), no se encuentran diferencias estadísticamente significativas.

6.4. Estrategias de afrontamiento ante el estrés relacionadas con el futuro según el género de los progenitores y la esperanza de vida de los hijos

Con respecto a las estrategias de afrontamiento vinculadas al futuro, todos los participantes coinciden en expresar con mayor frecuencia la percepción de futuro incierto, en primer lugar y la evitación cognitiva en segundo lugar.

En condiciones de enfermedad crónica en niños, el futuro incierto o la percepción de incertidumbre ha sido asociada con la salud mental de sus padres en diferentes estudios (Mu, 2005; Holm, Patterson, Rueter y Wamboldt, 2008). En este tipo

de enfermedades, de las que no se tiene un conocimiento definido ni de la evolución, tratamiento o posibilidad de curación a largo plazo, la incertidumbre puede generar con facilidad sentimientos de preocupación permanentes, tristeza, indefensión y altos niveles de estrés, especialmente en las madres (Holm et al., 2008). Los resultados del presente estudio no muestran ninguna correlación significativa entre el futuro incierto y estrategias de afrontamiento ni reacciones emocionales como la tristeza o la ansiedad. Las enfermedades neuromusculares, consideradas como enfermedades raras, tienen un carácter desconocido respecto a la evolución y expectativas de tratamiento, explicando de esta manera la incertidumbre ligada al futuro que se genera en los padres y madres.

Además de la percepción de incertidumbre con respecto al futuro que experimentan los padres y madres, también hay que destacar la evitación cognitiva asociada al futuro. Esta estrategia cognitiva busca eliminar o neutralizar los pensamientos valorados como negativos o perturbadores, a través de la distracción o negación (Moos, 1993; Moos y Holahan, 2003). Aunque la evitación cognitiva puede representar un alivio emocional, a largo plazo puede conllevar problemas de ajuste psicológico y mayor nivel de distress (Hack y Degner, 2004). En este estudio, los análisis correlacionales mostraron que, a mayor nivel de aceptación del futuro, mayor anticipación y confrontación y menor nivel de tristeza. Además, en todo el colectivo de participantes, las respuestas relacionadas con la evitación estuvieron asociadas a nivel significativo con una mayor percepción de tristeza y ansiedad.

6.5. Relación entre las estrategias de afrontamiento y la duración de la enfermedad y la edad de los progenitores

A continuación, se analiza la relación que hay entre la descripción de las estrategias de afrontamiento, con variables sociodemográficas como la edad de los progenitores y los años transcurridos desde el diagnóstico.

El tiempo transcurrido desde el momento del diagnóstico es un factor importante que puede afectar de manera positiva o negativa a las relaciones parentales (da Silva et al, 2010). En este sentido, se han observado cambios en la relación dentro de los cuatro primeros meses después del diagnóstico (Brody y Symmons, 2007). Sin embargo, cuando el hijo afectado lleva enfermo un año, los progenitores describen pocos cambios en su relación. Cuando la enfermedad lleva dos o tres años presente, hacen referencia a cambios positivos y cuando este periodo es mayor, se señalan pocos cambios (Lavee y May-Dan, 2003).

El estudio de Al-Gamal y Long (2010), comparando a padres y madres según el tiempo transcurrido desde el diagnóstico de su hijo, reveló que aquellos en los que la enfermedad había sido diagnosticada recientemente (0-6 meses) sufrían de manera significativa más reacciones relacionadas con el estrés (carga, tristeza, preocupación) que aquellos que habían recibido el diagnóstico de sus hijos hacía 6-12 meses. En dicho estudio no se encontraron diferencias entre géneros.

En respuesta a la pregunta de investigación número ocho "¿Afectan a las estrategias de afrontamiento la edad de los progenitores y la duración de la

enfermedad?", los resultados de esta tesis reflejan que no hay una tendencia clara ni positiva ni negativa con respecto a variables relacionadas con el ajuste emocional atendiendo a los años transcurridos desde el diagnóstico. A excepción de la tristeza, que muestra un patrón de subida y bajada significativa y la búsqueda de apoyo emocional que refleja una reducción, la ansiedad o estrategias de afrontamiento como la evaluación positiva, la búsqueda de apoyo profesional, la confrontación o la evitación cognitiva reflejan patrones cíclicos de subidas y bajadas. De esta manera, no se apoya completamente la hipótesis planteada número 3.1 "Cuanto más tiempo ha transcurrido desde el diagnóstico hasta la realización de la entrevista, menor nivel de distress".

Estos resultados encajan con la Teoría de la Tristeza Crónica de Eakes et al. (1998) desde la que se hace referencia a la existencia de diferentes fases en forma de ondas por las que tienen que vivir los padres y madres, cuando tienen que afrontar el hecho de tener un hijo/a con algún tipo de enfermedad severa. Desde este modelo, se propone que el duelo tiene un carácter cíclico por naturaleza y permite que los periodos de alegría y satisfacción sigan a momentos de mayor tristeza (Eakes, Burke y Hainsworth, 1998). Esta perspectiva propone que es normal y saludable que las personas re-experimenten los mismos sentimientos relacionados con el duelo que aparecieron en el proceso de duelo que acompañó al diagnóstico inicial.

En este sentido, Vaughn y Mendell (1986) entrevistaron a 15 madres de niños con enfermedad de Duchenne. Las entrevistas indicaron que las respuestas de las madres no se ajustaban al modelo establecido por Kubler-Ross (2000), el cual sugiere que los pacientes pasan por unas fases definidas a la hora de afrontar la muerte o una enfermedad crónica. Los autores de este estudio destacan el hecho de que la evolución

de la enfermedad de Duchenne pasa por periodos de estabilidad seguidos de una serie de conflictos, cambios repentinos y pérdidas físicas y emocionales, que conllevan nuevas fases de afrontamiento. Durante la fase de estabilidad, las madres pueden experimentar un grado de bienestar que se ve truncado por un avance drástico en la enfermedad, lo que conlleva un impacto emocional que las madres tienen que afrontar de nuevo, tal como lo hizo anteriormente. No todas las familias sienten las mismas cosas ni de la misma manera y que no existe una manera de ajuste más o menos efectiva que otras (Robins, 1991). Desde esta perspectiva, el ajuste a una distrofia muscular es un proceso continuo, caracterizado por una serie de fluctuaciones asociadas a los cambios evolutivos y a la naturaleza progresiva de la enfermedad.

Si analizamos la relación entre el uso de las estrategias de afrontamiento y la edad de los progenitores, son escasas las estrategias que varían a nivel significativo. Este hecho encaja con las teoría que defienden que el estilo de afrontamiento es relativamente estable durante el proceso vital y que la edad no predice el empleo de estrategias de afrontamiento basadas en la emoción ni en basadas en el problema (Trouillet, Gana, Lourel y Fort, 2009). Sin embargo, sí que parece existir una asociación negativa a nivel significativo entre la edad y desarrollo personal, así como con la búsqueda de apoyo emocional y una asociación positiva entre la edad y la dependencia emocional. Según Failla y Jones (1991) el hecho de tener más edad predice negativamente el funcionamiento familiar en madres con niños con discapacidad, posiblemente por haber pasado más tiempo asumiendo el rol de cuidador y por el incremento de las posibilidades de tener más hijos aparte del afectado.

6.6. Conclusiones

1. Las madres con hijos con enfermedades neuromusculares utilizan, en mayor medida que los hombres, la estrategia de afrontamiento basada en la búsqueda de apoyo emocional. Sin embargo, la estrategia de búsqueda de soluciones está presente de igual manera tanto en hombres como en mujeres, no existiendo diferencias significativas en cuanto a su empleo.

2. Las madres experimentan mayor nivel de distress que los padres, concretamente ansiedad, tristeza y problemas de salud. Estas reacciones emocionales estuvieron asociadas con mayor evitación, confrontación, falta de expresión emocional y futuro incierto.

3. Los padres y madres con hijos con enfermedad asociada a muerte prematura emplean en mayor medida la evaluación positiva que el grupo de padres con hijos con enfermedad no asociada a muerte prematura. Esta estrategia estuvo asociada con mayor percepción de desarrollo personal, aceptación y con menor falta de apoyo emocional y profesional.

4. El grupo de madres con hijos con enfermedad relacionada con muerte prematura emplea de forma significativamente mayor la negación que el grupo asociado a muerte no prematura.

5. El uso de la confrontación y la supresión de actividades distractoras, es mayor, a nivel significativo, en el grupo de hombres con hijos con enfermedades cuya esperanza de vida se haya reducida.

6. La estrategia de afrontamiento basada en la búsqueda de apoyo instrumental es significativamente más empleada en el grupo con enfermedades que no conllevan muerte prematura, especialmente en las madres. De esta manera, se apoya la hipótesis de que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida mayor, emplearán en mayor medida estrategias de afrontamiento basadas en el problema que aquellos cuyos hijos/as tienen una enfermedad asociada a muerte prematura.

7. La autoculpabilidad es experimentada en mayor medida y a nivel significativo por las madres de niños con enfermedades con esperanza de vida no reducida.

8. Los padres y madres entrevistados/as cuyos hijos/as tienen una esperanza de vida menor no experimentan un mayor nivel de distress que los padres y madres cuyos hijos/as tienen una enfermedad no asociada a muerte prematura.

9. La percepción de falta de apoyo profesional adquiere una gran importancia en el momento del diagnóstico para los participantes en este estudio. Esta variable estuvo asociada con la falta de esperanza, así con menores afirmaciones relacionadas con la evaluación positiva

10. El uso de la negación en el momento del diagnóstico destaca a nivel significativo especialmente en el colectivo de mujeres, tanto en grupo con enfermedades que conllevan muerte prematura como las que no.

11. La sensación de falta de apoyo emocional por parte de la pareja es significativamente mayor en el colectivo de mujeres, en comparación con el de hombres.

12. Con respecto a las estrategias de afrontamiento vinculadas al futuro, todos los participantes coinciden en expresar con mayor frecuencia la percepción de futuro incierto, en primer lugar y la evitación cognitiva en segundo lugar. No se observan diferencias significativas en cuanto al género de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados. Los análisis correlacionales mostraron que, a mayor nivel de aceptación del futuro, mayor anticipación y confrontación y menor nivel de tristeza. Las respuestas relacionadas con la evitación estuvieron asociadas con una mayor percepción de tristeza y ansiedad.

13. Con respecto a los años transcurridos desde el diagnóstico, se encuentran patrones cíclicos de subidas y bajadas con respecto a estados emocionales como la tristeza, la ansiedad o estrategias de afrontamiento como la evaluación positiva, la búsqueda de apoyo profesional, la confrontación o la evitación cognitiva, en línea con la Teoría de la Tristeza Crónica de Eakes et al. (1998).

14. En relación al empleo de las estrategias de afrontamiento según la edad de los progenitores, son escasas las estrategias que varían a nivel significativo, a excepción de la asociación negativa entre la edad y desarrollo personal, así como con la búsqueda de apoyo emocional y una asociación positiva entre la edad y la dependencia emocional.

6.7. Limitaciones del estudio

En primer lugar, una de las limitaciones de esta tesis es el hecho de que la muestra es pequeña, puesto que ha sido seleccionada dentro del colectivo de enfermedades raras o de baja prevalencia. En este sentido y, tal y como se señaló en el apartado que describe la muestra, los participantes representan entre el 15% y el 35% de la población de niños/as afectados por enfermedades neuromusculares de las provincias en las que se hizo el estudio.

En relación a la determinación del tamaño muestral en estudios cualitativos, no existen reglas preestablecidas (Patton, 2002). Si los datos están analizados apropiadamente, llega un momento en que se va reduciendo la cantidad nueva de información obtenida a partir de unidades de análisis adicionales. La redundancia constituye un criterio para la determinación del tamaño muestra. Además, la información con la que se trabaja en un análisis cualitativo es tan variada y extensa que es justificable la utilización de muestras pequeñas (Ritchie y Lewis, 2003; Patton, 2002).

Con respecto al método de selección de la muestra, la totalidad de participantes se incluyeron en el estudio de manera voluntaria. Este hecho puede tener un efecto en los resultados ya que estas personas tienen una tendencia a manifestar niveles superiores de capacidad intelectual, interés y motivación, mostrándose a su vez menos autoritarios y más sociables. Estas personas pueden mostrar un perfil que les hace propensos a participar en múltiples estudios, exponiéndose al efecto del reactivo consistente que la

influencia inter-estudios provocada por la participación repetida en diferentes investigaciones (Amayra, 2005).

Otra limitación es la falta de inclusión de un grupo control de familiares con niños sanos o afectados por otras enfermedades graves o degenerativas como el cáncer para analizar posibles diferencias en los patrones de afrontamiento.

Con respecto a la validez concurrente del estudio, una limitación del presente estudio es la no inclusión de un protocolo de cuestionarios de evaluación de variables como el afrontamiento, distress o apoyo social, con el fin de contrastar el análisis cualitativo con instrumentos cuantitativos y previamente validados.

Por último, este estudio es de corte transversal y tiene en cuenta la percepción del afrontamiento en el momento del diagnóstico y del futuro, desde la vivencia del presente. Es evidente que un estudio longitudinal sería el más adecuado para el estudio de los mecanismos de afrontamiento a lo largo de la evolución de la enfermedad de sus hijos.

En relación a los puntos fuertes de este este estudio se pueden destacar los siguientes:

1. Estudia aspectos psicosociales de familiares con hijos afectados por enfermedades raras, colectivo que recibe poca atención por parte de la literatura científica.

2. Estudia y compara enfermedades neuromusculares más alla de la distrofia muscular de Duchenne. La mayor parte de la bibliografía relacionada con el afrontamiento con padres y madres con hijos con enfermedades neuromusculares se centra en el colectivo de distrofia muscular de Duchenne.

3. Tiene en cuenta las estrategias de afrontamiento desde el punto de vista temporal, considerando el momento del diagnóstico, la vivencia del presente y la percepción del futuro.

4. Incluye tanto a madres como a padres, teniendo en cuenta las diferencias en cuanto al género en el estudio de las estrategias de afrontamiento.

5. Los grupos a partir de los cuales se han efectuado análisis cuantitativos comparativos han sido homogéneos en cuanto al género de los progenitores y esperanza de vida de sus hijos.

6. Compara grupos de padres y madres con hijos afectados por enfermedades neuromusculares considerando la esperanza de vida. En la literatura científica no existe un gran número de estudios que profundicen en este aspecto (Katz, 2002).

7. Combina la metodología cualitativa con la cuantitativa. Aunque el enfoque cualitativo es el método principal de análisis de las respuestas de

los participantes, su codificación y posterior análisis cuantitativo aporta un valor añadido a la tesis.

6.8. Implicaciones

Expuestos los principales hallazgos y limitaciones de la investigación, se plantean algunas de las implicaciones que se desprenden de los resultados del estudio:

- Implicaciones teóricas: este estudio supone un análisis de las estrategias de afrontamiento del estrés en padres y madres con hijos con enfermedades neuromusculares, teniendo en cuenta especialmente el género y la edad de los progenitores y la esperanza de vida de los afectados, desde una dimensión temporal: presente, momento del diagnóstico y vivencia del futuro.

- Implicaciones clínicas:

1. Los servicios sociosanitarios necesitan incluir grupos de apoyo entre padres y madres, así como mecanismos de comunicación entre afectados (p.e. teleasistencia), coordinados o no por un profesional, fomentando de esta manera la posibilidad de buscar apoyo social tanto emocional como instrumental entre familiares de afectados. En estos grupos los participantes tienen la oportunidad de expresar tanto sentimientos positivos como negativos relacionados con la enfermedad de sus hijos y de sus consecuencias y de aprender estrategias de afrontamiento.

2. Poner en práctica programas de respiro para familiares para descargar de la sensación de distress y fatiga experimentada por los padres y madres.

3. Tener en cuenta el factor de género ya que las mujeres, especialmente por su papel como cuidadoras principales, tienen más probabilidad de experimentar mayor distress y sentimientos de autoculpabilidad.

4. A lo largo de la literatura científica, así como en la práctica sociosanitaria se ha hecho hincapié en las reacciones negativas experimentadas por los familiares de niños afectados por enfermedades degenerativas. Los datos de la tesis indican la importancia de potenciar los sentimientos positivos, la aceptación, el desarrollo personal, así como estrategias de afrontamiento que fomenten la evaluación positiva como manera de lograr una mejor adaptación ante la situación generada por la enfermedad.

5. Mejorar la percepción que tienen los padres y madres con respecto al apoyo por parte de los profesionales socio-sanitarios, especialmente en el momento del diagnóstico, a través de actuaciones de formación en habilidades de comunicación terapéutica dirigidas a dichos profesionales.

6. Los servicios sociosanitarios, además de tener en cuenta las necesidades psicosociales individuales de los afectados y de los padres y madres, deben prestar especial atención a la relación de pareja y los posibles conflictos y problemas de comunicación surgidos por la situación.

7. Fomentar estrategias de aceptación de la situación en el futuro, en detrimento de estrategias de evitación asociadas en mayor medida con el distress.

8. Tener en cuenta la variable esperanza de vida en la realización de actuaciones psicosociales, concretamente en las siguientes variables: búsqueda de apoyo instrumental, confrontación, autoculpabilidad y negación.

9. Considerar el componente cíclico de las reacciones emocionales y estrategias de afrontamiento a lo largo de la evolución de la enfermedad, es decir, tener en cuenta que los familiares tienen que superar recaídas y crisis constantes desde el diagnóstico y las consecuencias a nivel emocional.

BIBLIOGRAFÍA

Abbott, D. & Mederith, W. (1986). Strengths of parents with retarded children. *Family Relations, 35*, 371-375. doi:10.2307/584363

Abi Daoud, M., Dooley, J. & Gordon, K. (2004). Depression in parents of children with Duchenne muscular dystrophy. Pediatric Neurology, 31, 16-19. doi: 10.1002/ajmg.a.33364

Abidin, R. (1995). *The Parenting Stress Index: Short Form*. Charlottesville, VA: Pediatric Psychology Press. doi: doi:10.1207/s15374424jccp2401_4

Abramson, L., Seligman, M. & Teasdale, J. (1978). Learned helplessness in humans: critique and reformulation. *Journal of Abnormal Psychology, 87,* 49-74.

Achenbach, T. (1991). *Manual for the Child Behavior Checklist/4-18 and 1991 profile*. Burlington: University of Vermont, Department of Psychiatry.

Affleck, G., Tennen, H. & Gersham, K. (1985). Cognitive adaptation to high-risk infants. The search for mastery, meaning and protection form future harm. *American Journal of Mental Deficiency, 89*, 653-656.

Affleck, G., Pfeiffer, C., Tennen, H. & Fifield, J. (1988). Social support and psychosocial adjustment to rheumatoid arthritis. *Arthritis Care and Research, 1*, 71-77. doi: doi:10.1002/art.1790010203

Affleck, G. & Tennen, H. (1996). Construing benefits form adversity: adaptational significance and dispositional underpinnings. *Journal of Personality, 64*, 899-922. doi:10.1111/j.1467-6494.1996.tb00948.x

Ahlström, G. & Sjodén, P. (1994). Assessment of coping with muscular dystrophy: a methodological evaluation. *Journal of Advanced Nursing, 20*, 314- 323.

Ahlström, G. & Wenneberg, S. (2002). Coping with illness-related problems with progressive muscular diseases: the Swedish version of the Ways of Coping

Questionnaire. *Scandinavian Journal of Caring Sciences, 16,* 368- 375. doi:10.1046/j.1471-6712.2002.00099.

Ahlström, G. & Bostrom, K. (2004). Living with a chronic deteriorating disease: the trajectory with muscular dystrophy over ten years. *Disability and Rehabilitation, 26,* 1388-1398.

Ahlström, G., Lindvall, B., Wenneberg, S. & Gunnarsson, LG. (2006). A comprehensive rehabilitation programme tailored to the needs of adults with muscular dystrophy. *Clinical Rehabilitation, 20,* 132-141. doi:10.1191/0269215506cr898oa

Aldebot, S. & Weisman, A. (2009). Denial and acceptance coping styles and medication adherence in schizophrenia. *Journal of Nervous and Mental Disorders, 197,* 580-584. doi:10.1097/NMD.0b013e3181b05fbe

Al-Gamal, E. & Long, T. (2010). Anticipatory grieving among parents living with a child with cancer. *Journal of Advanced Nursing, 30,* 1980-1990.

Amayra, I. (2000). *Crisis y disfunciones familiares ante el duelo*. El Duelo. Asociación Española Contra el Cáncer, Bilbao.

Amayra, I. (2005). Consideraciones metodológicas en torno al estudio psicosocial de los procesos de envejecimiento. *Letras de Deusto, 35,* 161-187.

American Psychiatric Association (2000). *Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disroders, DSM-IV-TR.* 4ª Edición. Arlington: American Psychiatric Association.

Angst, J., Gamma, A., Gastpar, M., Lépine, J., Mendelewitcz, J. & Tylce, A. (2002). Gender differences in depression: epidemiological findings form the Europcan DEPRES- and II studies. *European Archives of Psychiatry and Clinical Neuroscience, 252,* 201-209. doi:10.1007/s00406-002-0381-6

Antonak, R., Livneh, H. & Antonak, C. (1993). A review of research on psychosocial adjustment to impairment in persons with traumatic brain injury. *Journal of Head Trauma Rehabilitation, 8,* 87-100. doi:10.1097/00001199-199312000-00009

Armstrong, M., Birnie-Lecovitch, S. & Ungarm, M. (2005). Pathways between social support, family well-being, quality of parenting and child resilience: what we know. *Journal of Child and Family Studies, 14,* 269-281. doi:10.1007/s10826-005-5054-4

Asociación Española contra las Enfermedades Neuromusculares. (2004). *Enfermedades neuromusculares, 49 fichas.* ASEM.

Aspinwall, L. & Taylor, S. (1997). A stich in time: self-regulation and proactive coping. *Psychological Bulletin, 121,* 417-436. doi:10.1037//0033-2909.121.3.417

Bach, P., Morán, D. & Hayes, C. (2008). *ACT in practice. Case conceptualization in acceptance and commitment therapy*. Oakland, CA: New Harbinger Publications.

Baddeley, J. L., & Pennebaker, J. W. (2011). The expressive writing method. En L. L'Abate & L. G. Sweeney (Eds.), *Research on writing approaches in mental health*. Bingley United Kingdom: Emerald Group Publishing.

Baiardini, I., Minetti, C., Bonifacino, S., Porcu, A., Klersy, C., Petralia, P., Balestracci, S., Tarchino, F., Parodi, S., Walter, G. & Braido, F. (2011) Quality of life in Duchenne muscular dystrophy: the subjective impact on children and parents. *Journal of Child Neurology, 16*, 707-713. doi:10.1177/0883073810389043

Baker, S., Owens, J., Stern, M. & Willmot, D. (2009). Coping strategies and social support in the family impact of cleft lip and palate and parents´adjustment and psychological distress. *The Cleft Palate-Craniofacial Journal, 46,* 229-236. doi:10.1597/08-075.1

Bänzinger, S., Van Uden, M. & Janssen, J. (2008). Praying and coping: the relation between varieties of praying and religious styles. *Mental Health, Religion & Culture, 11,* 101-118.

Baumeister, R. (1991). *Meanings of life*. New York: Gildford Press.

Baumeister, R., Vohs, K. & Tie, D. (2007). The strength model of self-control. *Current Directions on Psychological Science, 16,* 351-355. doi:10.1111/j.1467-8721.2007.00534.x

Baumeister, R. (2012). Self-control the moral muscle. *Psychologist, 25,* 112-115.

Behr, S., Murphy, D. & Summers, J. (1992). *Kansas Inventory of Parental Perceptions*. Lawrence: University of Kansas, Beach Center on Families and Disabillity.

Bennett, K., Compas, B., Beckjord, E. & Glinder, J. (2005). Self-blame and distress among women with newly diagnosed breast cancer. *Journal of Behavioral Medicine, 28,* 313-324. doi:10.1007/s10865-005-9000-0

Beresford, B. (1994). Resources and strategies: how parents cope with the care of a disabled child. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 35,* 171-209. doi:10.1111/j.1469-7610.1994.tb01136.x

Berzonsky, M. (1992). Identity style and coping strategies. *Journal of Personality, 60,* 771-788. doi:10.1111/j.1467-6494.1992.tb00273.x

Besharat, M., Eisler, I. & Dare, C. (2001). The self and other blame scale (SOBS). The background and presentation of a new instrument for measuring blame in families. *Journal of Family Therapy, 23,* 208-223. doi:10.1111/1467-6427.00179

Beyer, A. & Daino, T. (1991). Charcot-Marie-Tooth disease and the family: psychosocial aspects. *Loss, Grief and Care, 4,* 143-154. doi: 10.1300/J132v04n03_13

Bishop, M. (2005). Quality of life and psychosocial adaptation to chronic illness and disability: preliminary análisis of a conceptual and theorical síntesis. *Rehabilitation Counseling Bulletin, 48,* 219 – 231. doi:10.1177/00343552050480040301

Blalock, J. & Joiner, T. (2000). Interaction of cognitive avoidance coping and stress in predicting depression/anxiety. *Cognitive Therapy and Research, 24*, 47-65. doi:10.1023/A:1005450908245

Boals, A., vanDellen, M. & Banks, J. (2011). The relationship between self-control and health: the mediating effect of avoidant coping. *Psychology and Health, 26*, 1049-1062. doi:10.1080/08870446.2010.529139

Bogart, L. & Helgeson, V. (2000). Social comparisons among women with breast cancer: a longitudinal investigation. *Journal of Applied Social Psychology, 30*, 547-575. doi:10.1111/j.1559-1816.2000.tb02496.x

Bonano, G., Keltner, D., Holen, A. & Horowitz, M. (1995). When avoiding unpleasant emotions might not be such a bad thing: verbal-autonomic response dissociation and midlife conjugal bereavement. *Journal of Personality and Social Psychology, 69*, 975-989.

Bonanno, G., Moskowitz, J., Papa, A. & Folkman, S. (2005). Resilience to loss in bereaved spouses, bereaved parents and bereaved gay men. *Journal of Personality and Social Psychology, 88*, 827-843. doi:10.1037/0022-3514.88.5.827

Boss, P. (2002). *Family stress management: a contextual approach*. Thousand Oaks, CA: Sage.

Boström, K. & Ahlström, G. (2005). Living with a hereditary disease: persons with muscular dystrophy and their next of kin. *American Journal of Medical Genetics, 136*, 17-24. doi:10.1002/ajmg.a.30762

Boström, K. & Ahlström, G. (2006). Being the next of kin of an adult person with muscular dystrophy. *Clinical Nursing Research, 15*, 2, 86-104. doi:10.1037/0022-3514.88.5.827

Bothwell, J., Dooley, J., Gordon, K., MacAuley, A., Camfield, P. & MacSween, J. (2002). Duchenne muscular dystrophy parental perceptions. *Clinical Pediatrics, 41*, 105- 109. doi:10.1177/000992280204100206

Boyatzis, R. (1998). *Transforming qualitative information. Thematic analysis and code development*. London: Sage Publications. doi:10.1037/a0024527

Boyer, F., Morrone, I., Laffont, I., Dizien, O., Etienne, J. & Novella, J. (2006). Health related quality of life in people with hereditary neuromuscular diseases: an investigation of test- retest agreement with comparison between two generic questionnaires, the Nottingham health profile and the short form-36 items. *Neuromuscular Disorders, 16*, 99-106. doi:10.1016/j.nmd.2005.11.002

Bowlin, S. & Baer, R. (2012). Relationships between mindfulness, self-control and psychological functioning. *Personality and Individual Differences, 52*, 411-415. doi:10.1016/j.paid.2011.10.050

Brakel, T., Dijkstra, A., Buunk, A. & Siero, F. (2011). Impact of social comparison on cancer survivors´ quality of life: an experimental field study. *Health Psychology, 1-*11. doi:10.1037/a0026572

Brandstadter, L & Renner, R. (1990). Tenacious goal pursuit and flexible goal adjustment: explication and age-related analysis of assimilative and accommodative strategies of coping. *Psychology and Aging, 5*, 1, 58-67.

Bray, P., Bundy, A., Ryan, M., North, K. & Everett, A. (2010). Health-related quality of life in boys with Duchenne muscular dystrophy: agreement between parents and

their sons. *Journal of Child Neurology, 25*, 1188-1194. doi:10.1177/0883073809357624

Bray, P., Bundy, A., Ryan, M., North, K & Burns, J. (2011). Health status of boys with Duchenne muscular dystrophy: a parent´s perspective. *Journal of Paediatrics and Child Health, 47*, 557-562. doi: 10.1111/j.1440-1754.2011.02022.

Braun, V. & Clarke, V. (2006). Using thematic analysis in psychology. *Qualitative Research in Psychology, 3*, 77-101. doi:10.1191/1478088706qp063oa

Brink, E, Persson, L. & Karlson, B. (2009). Coping with myocardial infarction: evaluation of a coping questionnaire. *Scandinavian Journal of Caring Science, 23,* 792-800. doi:10.1111/j.1471-6712.2008.00666.x

Brinks, A., Feaster, D. & Mitrani, V. (2010). A multilevel mediation model of stress and coping for women with HIV and their families. *Family Process, 49*, 517-529. doi:10.1111/j.1545-5300.2010.01318.x

Brody, A. & Symmons, L. (2007). Family resiliency during childhood cancer: the father´s perspective. *Journal of Pediatric Oncology Nursing, 24*, 152-165.

Buchanan, D., Labarbera, C., Roelofs, R. & Olson, W. (1979). Reactions of families to children with Duchenne Muscular Dystrophy. *General Hospital Psychiatry, 1*, 262-269. doi:10.1016/0163-8343(79)90028-8

Bungener, C., Jouvent, R. & Delaporte, C. (1998). Psychopathological and emotional deficits in myotonic dystrophy. *Journal of Neurology and Neurosurgery Psychiatry, 65*, 353- 356. doi:10.1136/jnnp.65.3.353

Buunk, A. (2005). Procesos de comparación social en pacientes que sufren cáncer. *Psicodebate. Psicología, Cultura y sociedad, 6*, 29-43.

Buunk, A., Brakel, T., Bennenbroek, F., Stiegelis, H., Sanderman, R., Van den Bergh, A. & Hagedoorn, M. (2009). Neuroticism and responses to social comparison

among cancer patients. *European Journal of Personality, 23*, 475-487. doi:10.1002/per.720

Buunk, B., Collins, R., Taylor, S., Vanyperen, N. & Dakof, G. (1990). The affective consequences of social comparison: either direction has its ups and downs. *Journal of Personality and Social Psychology, 59,* 1238-1249. doi:10.1037//0022-3514.59.6.1238

Buunk, A., Zurriaga, R. & González, P. (2006). Social comparison, coping and depression in people with spinal cord injury. *Psychology and Health, 21*, 791-807. doi:10.1080/14768320500444117

Burr, W. (1982). Families under stress. En McCubin, H., Cauble, E. & Patterson, J. (Eds.) *Family stress, coping and social support*. Springfield: Charles Thomas.

Burr, W. & Klein, R. (1994). *Reexamining family stress: new theory and research*. London: Sage Publications.

Burton, P., Lethbridge, L., & Phillips, S. (2008). Children with disabilities and chronic conditions and longer-term parental health. *Journal of Socio-Economics, 37,* 1168-1186. doi:10.1016/j.socec.2007.01.032

Büssing, A., Matthiessen, P. & Mundle, G. (2008). Emotional and rational disease acceptance in patients with depression and alcohol addiction. *Health and Quality of Life Outcomes, 6*, 1-11. doi:10.2190/PM.38.3.j

Cannon, W. (1932). *The wisdom of the body.* New York Norton.

Cano-Vindel, A., Sirgo, A. & Díaz- Ovejero, M.B. (1999). Control, defensa y expresión de emociones: relaciones con la salud y la enfermedad. En (coord.) Fernández Abascal, E. G. Palmero, F. *Emociones y Salud* (pp. 69-87). Ariel Psicología Ed.

Carpenter, B. & Scott, S. (1992). Interpersonal aspects of coping. En Carpenter, B. (Ed.) *Personal coping. Theory, research and application* (pp. 93-109). London: Praeger Publishers.

Carver, C., Scheier, M., Weintraub, J. (1989). Assessing Coping Strategies: a theoretically based approach. *Journal of Personality and Social Psychology, 56,* 267-283. doi:10.1037//0022-3514.56.2.267

Chandorkar, H. & Chakraborty, P. (2000). Psychological morbidity of parents of mentally retarded children. *Indian Journal of Psychiatry, 42*, 271-274.

Chao, H., Tsai, T., Livneh, H., Lee, H. & Hsieh, P. (2010). Patients with colorectal cancer: relationship between demographic and disease characteristics and acceptance of disability. *Journal of Advanced Nursing, 66,* 2278-2286. doi:10.1111/j.1365-2648.2010.05395.x

Charmaz, K. (2003). Grounded Theory. En Smith, J. A. (Ed.), *Qualitative psychology: a practical guide to methods.* London: Sage.

Chen, J. (2008). Mediators affecting family function in families of children with Duchenne muscular dystrophy. *Kaohsiung Journal of Medical Sciences, 24*, 514-522. doi:10.1016/S1607-551X(09)70010-5

Chen, J. & Clark, M. (2007). Family function in families of children with Duchenne muscular dystrophy. *Family Community Health, 30*, 296–304.

Chen, J. & Instone, S. (2008). *Family resilience and functioning in child with Duchenne muscular dystrophy.* VDM Verlag Dr. Müller Ed.

Chorot, P. & Sandín, B. (2003). Cuestionario de afrontamiento del estrés (CAE): desarrollo y validación preliminar. *Revista de Psicopatología y Psicología Clínica, 8*, 39-54.

Chou, C., Chen, Y., Chen, C., Chen, J. & Mu, P. (2009). Family experience of waiting for living donor liver transplantation: from parental donor perspective. *Journal of Clinical Nursing, 18,* 1684-1692. doi:10.1111/j.1365-2702.2008.02750.x

Chung, B., Wong, V & Ip, P. (2008). Prevalence of neuromuscular diseases in Chinese children: a study in southern China. *Journal of Child Neurology, 18,* 3, 217-219.

Clarke-Steggen, L. (1993). Waiting and not knowing: the diagnosis of cancer in a child. *Journal of Pediatric Oncology Nurses, 10,* 146-156.

Clarke, N., McCarthy, M., Downie, P., Ashley, D. & Anderson, V. (2009). Gender differences in the psychosocial experience of parents of children with cancer: a review of the literature. *Psycho-Oncology, 18,* 907-915. doi:10.1002/pon.1515

Classen, C., Koopman, C., Angell, K. & Spiegel, D. (1996). Coping styles associated with psychological adjustment to advanced breast cancer. *Health Psychology, 15,* 434-437. doi:10.1037//0278-6133.15.6.434

Cohen, J. (1960). A coefficient of agreement for nominal scales. *Educational and Psychological Measurement, 20,* 37-46. doi:10.1177/001316446002000104

Cohen, S. & Syme, S. (1985). *Social support and health.* New York: Academic Press.

Colbert, K. (1994). The longer the delay, the greater the anxiety. *Professional Nurse, 9,* 517-520.

Cobb, S. (1976). Social support as a moderator of life stress. *Psychosomatic Medicine, 38,* 300-314.

Cook, D., & Hayes, S. C. (2010). Acceptance-based Coping and the Psychological Adjustment of Asian and Caucasian Americans. *International Journal of Behavioral Consultation & Therapy, 6,* 186-197.

Cook, J. & Wimberly, D. (1983). If I should die before I wake: religious commitment and adjustment to the death of a child. *Journal for the Scientific Study of Religion, 22*, 222-238. doi:10.2307/1385967

Cooke, L., Myers, L. & Derakshan, N. (2003). Lung function, adherence and denial in asthma patients who exhibit a repressive coping style. *Psychology, Health & Medicine, 8*, 35-44.

Costa-Requena, G., & Gil, F. (2009). The mental adjustment to cancer scale: a psychometric analysis in Spanish cancer patients. *Psycho-Oncology, 18*(9), 984-991. doi:10.1002/pon.1466

Costa, J. & Pinto-Gouveia, J. (2011). The mediation effect of experiential avoidance between coping and psychopathology in chronic pain. *Clinical Psychology and Psychotherapy, 18*, 34-47. doi:10.1002/cpp.699

Cowan, P., Cowan, C. & Schulz, M. (1996). Thinking about risk and resilience in families. En Hetherington, M. & Blechman, E. (Eds.), *Stress, coping and resiliency in children and families* (pp. 1-38). New Yersey: Lawrence Erlbaum Associates Publishers.

Curtis, R., Groarke, A., Couchlan, R. & Gsel, A. (2004). The influence of disease severity, perceived stress, social support and coping in patients with chronic illness: a 1 year follow up. *Psychology, Health & Medicine*, *9*, 456-475. doi:10.1080/1354850042000267058

Cyrulnik, S., Fee, R., Batchelder, A., Kiefel, J., Goldstein, E. & Hinton, V. (2008). Cognitive and adaptive deficits in young children with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of the International Neuropsychological Society, 14,* 853–861. doi:10.1017/S135561770808106X

Dahlbom, K., Ahlström G., Barany, M., Kihlgren, A. & Gunnarsson, L.G. (1999). Muscular dystrophy in adults: a five year follow-up. *Scandinavian Journal Rehabilitation Medicine 31,* 178-184.

Davis, M., Matthews, K. & Twamley, E. (1999). Is life more difficult on Mars or Venus? A meta-analytic review of se differences in major and minor life events. *Annals of Behavioral Medicine, 21,* 83-97. doi:10.1007/BF02895038

Decker, C. (2007). Social support and adolescent cancer survivors: a review of the literature. *Psycho-oncology, 16,* 1-11. doi:10.1002/pon.1073

DeLongis, A. & Holtzman, S. (2005). Coping in context: the role of stress, social support and personality in coping. *Journal of Personality, 73,* 1-24. doi:10.1002/pon.1073

Denise, J. (2001). *Depression and coping in adults with neuromuscular diseases*. University of Arizona.

Derogatis, L. (1977). *SCL-90-R Administration, Scoring and Procedure Manual (Vol. 1).* Baltimore: Clinical Psychometric Research.

Dhaliwal, S. & Hunt, R. (2004). Doctor–patient interaction for irritable bowel syndrome in primary care: a systematic perspective. *European Journal of Gastroenterology & Hepatology, 16,* 1161–1166. doi:10.1097/00042737-200411000-00013

Dirkse, D. & Giese-Davis, J. (2012). Shame and guilt in lung cancer. The stigma of lung cancer. *Oncology Echange, 11,* 1.

Drotar D., Baskiewicz A., Irvin N., Kennell J.H. & Klaus M.H. (1975). The adaptation of parents to the birth of an infant with a congenital malformation: a hypothetical model. *Pediatrics, 56,* 710-717.

Dooley, J., Gordon, K., Dodds, L. & MacSween, J. (2010). Duchenne muscular dystrophy: a 30 year population based incidence study. *Clinical Pediatric, 49,* 177-179. doi:10.1177/0009922809347777

Dubé, J. E. (2008). Evaluación del acuerdo interjueces en investigacion clinica breve introducción a la confiabilidad interjueces. *Revista Argentina de Clínica Psicológica, 17*, 75-80.

Düger, T., Yilmaz, O., Aki, E., Kayihan, H. & Karaduman, A. (2003). The environmental barriers of children with Muscular Dystrophies and its effect on mother's low back pain. *Disability and Rehabilitation, 25,* 1187- 1192. doi:10.1080/0963828031000159995 2

D´Zurilla, T. & Goldfried, M. (1971). Problem solving and behavior modification. *Journal of Abnormal Psychology, 78,* 107-126. doi:10.1037/h0031360

Eakes, G., Burke, M. & Hainsworth, M. (1998). Middle-range theory of chronic sorrow. *Journal of Nursing Scholarship, 30,* 179-184. doi:10.1111/j.1547-5069.1998.tb01276.x

Eaton, R. & Bradley, G. (2008). The role of gender and negative affectivity in stressor appraisal and coping selection. *International Journal of Stress Management, 15,* 94-115. doi:10.1037/1072-5245.15.1.94

Egner, A., Phillips, V.L. & Vora, R. (2003). Depression, fatigue and health-related quality of life among people with advanced multiple sclerosis: Results from an exploratory telerehabilitación study. *Neurorehabilitation, 18,* 125-133.

Ell, K. (1996). Social networks, social support and coping with serious illness: The family connection. *Social Sciences & Medicine, 42,* 173-183. doi:10.1016/0277-9536(95)00100-X

Elliot, G. R., y Eisdorfer, C. (1982) (Eds.). *Stress and human health: Analysis and implications for research*. New York: Springer.

Elliot, A., Thrash, T. & Murayama, K. (2011). A longitudinal analysis of self-regulation and well-being: avoidance personal goals, avoidance coping, stress generation and subjective well-being. *Journal of Personality, 79*, 643- 674.

Emery, A. (1991). Population frequencies of inherited neuromuscular diseases a world survey. *Neuromuscular Disorders, 1*, 19-29. doi:10.1016/0960-8966(91)90039-U.

Epel, E., McEwen, B. & Ickovies, J. (1998). Embodying psychological thriving: physical thriving in response to stress. *Journal of Social Issues, 54*, 301-322.

Everly, G. S. (1989). *A Clinical Guide to the Treatment of the Human Stress Response*. Nueva York: Plenum.

Failla, S. & Jones, L. C. (1991). Families of children with developmental disabilities: An examination of family hardiness. *Research in Nursing and Health, 14*, 42-50.

Farmer, J., Donders J. & Warschausky, S. (Ed.). (2006). *Treating neurodevelopmental disabilities: clinical research and practice*. New York: The Guilford Press.

Feldman, E., Grisold, W., Russell, J., Zifko, U. (2004). *Atlas of neuromuscular diseases. A practical Guide.* Viena: Springer-Verlag.

Felsten, G. (1998). Gender and coping: use of distinct strategies and associations with stress and depression. *Anxiety, Stress and Coping, 11*, 289-309. doi:10.1080/10615809808248316

Fernández-Abascal, E. G. (2003). El Estrés. En E. G. Fernández- Abascal, M. P. Jiménez Sánchez y M. D. Martín Díaz. *Emoción y motivación. La adaptación humana, Vol. II* (pp. 963- 1018). Madrid: Centro de Estudios Ramón Areces.

Fernández-Abascal, E. (1997). Estilos y estrategias de afrontamiento. En Fernández Abascal, E., Palmero, F., Chóliz, M. y Martínez, F. (Eds.), *Cuaderno de Prácticas de Motivación y Emoción*. Madrid: Pirámide.

Fernández-Ballesteros, R. (2003). A Psychology of human strengths: fundamental questions and future directions for a positive Psychology. En Aspinwall, L. & Staundinger, U. (Eds). *A psychology of human strengths: Fundamental questions and future directions for a positive psychology.* American Association, Washington, DC.

Field, A. (2009). *Discovering statistics using SPSS.* Sage Publications.

Fink, G. (2011). Stress Controversies: Post-Traumatic Stress Disorder, Hippocampal Volume, Gastroduodenal Ulceration. *Journal of Neuroendocrinology, 23,* 107-117. doi:10.1111/j.1365-2826.2010.02089.

Firth, M., Gardner- Medwin, D., Hosking, G. & Wilkinson, E. (1983). Interviews with parents of boys suffering form Duchenne muscular dystrophy. *Developmental Medicine & Child Neurology, 25*, 466-471. doi:10.1111/j.1469-8749.1983.tb13791.

Fischer, J. & Corcoran, K. (1994). *Measures for Clinical Practice: A sourcebook* (2nd ed.). New York: The Free Press.

Fitzpatrick, C. (2000). *Re-examining the construct of fatalism in women with breast cancer: stoic resignation versus spiritually focused acceptance*. Doctoral dissertation. University of California.

Flett, G., Blankstein, K & Holloway, L. (1990). Depression and complex attributions of blame in self and others. *Journal of Personality and Social Psychology, 50,* 992-1003.

Folkman, S. (1992). Making the case for coping. En Carpenter (Ed.), *Personal coping. Theory, research and application.* London: Praeger.

Folkman, S. (1997). Positive psychological states and coping with severe stress. *Social Science and Medicine, 45*, 1207-1221.

Folkman, S & Greer, S. (2000). Promoting psychological well-being in the face of serious illness: when theory, research and practice inform each other. *Psycho-Oncology, 9*, 11-19.

Folkman, S., Lazarus, R., Dunkel-Schetter, C., DeLongis, A. & Gruen, R. (1986). The dynamics of a stressful encounter: Cognitive appraisal, coping, and encounter outcomes. *Journal of Personality and Social Psychology, 50*, 572-597.

Folkman, S., Moskowitz, J. Ozer, E. & Park, C. (1997). Positive meaningful events and coping in the context of HIV/AIDS. En Gottlieb, B. (Ed.), *Coping with chronic stress* (pp. 292-314). New York: Plenum.

Folkman, S. & Lazarus, R. (1998). *Manual for the Ways of Coping Questionnaire*. Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.

Folkman, S. & Moskowitz, J. (2004). Coping: pitfalls and promise. *Annual Review Psychology, 55*, 745-774.

Folkman, S. & Moskowitz, J. (2000). Stress, positive emotion and coping. *Current Directions in Psychological Science, 9*, 115-118.

Folkman, S. & Moskowitz, J. (2000). Positive affect and the other side of coping. *American Psychologist, 55,* 647-654.

Forman, S. G. (1993). *Coping Skills Interventions for Children and Adolescents*. San Francisco: Jossey- Bass.

Frank-Stromborg, M. (1989). Reaction to the diagnosis of Cancer Questionnaire Development and psychometric evaluation. *Nursing Research, 38*, 364-369. doi:10.1097/00006199-198911000-00014

Fredrikson, B. & Levenson, R. (2008). Positive emotions speed recovery form the cardiovascular sequelae of negative emotions. *Cognition and Emotion, 12,* 191-200.

Fredrickson, B. (2009) *Positivity*. New York: Crown Publications.

Freud, S. (1920*). A general introduction to psychoanalysis*. Nueva York: Medical War books.

Freud, S. (1961). *The ego and the id: standard Edition of the Complete Psychological Works of Freud*, Vol. I. Hogarth Press, London.

Froman, R. & Owen, S. (1989). Infant care self efficacy. *Scholarly Inquiry for Nursing Practice: an International Journal, 3,* 199-211. doi:10.1177/019394598901100308

Gagliardi, B. (1991). The family´s experience of living with a child with Duchenne muscular dystrophy. *Applied Nursing Research, 4,* 159-164. doi:10.1016/S0897-1897(05)80090-4

Garrido, M., Hash-Converse, J., Levental, H. & Leventhal, E. (2011). Stress and chronic disease management. In Contrada, R., Baum, A. (Eds.), *The handbook of stress science: Biology, Psychology and Health.* Springer Publishing Company.

Gary, J. M. & Remolino, L. (2000). Coping with loss and grief through on-line support groups. En Bloom, J. & Walz, G. (Eds.), *Cybercounseling and Cyberlearning: Strategies and Resources for the Millennium* (pp. 95-115). American Counseling Association.

Gauntlett, J. & Connell, H. (2012). Coping and acceptance in chronic childhood conditions, *Paediatric Psychology, 25*, 198-201.

George, A., Vickers, M., Wilkes, L. & Barton, B. (2007). Chronic grief: experiences of working parents of childesn with chronic illness. *Contemporary Nurse, 23,* 228-242.

Gerson, R., Wong, C., Davidson, L., Malaspina, D., McGlashan, T., & Corcoran, C. (2011). Self-reported coping strategies in families of patients in early stages of

psychotic disorder: an exploratory study. *Early Intervention in Psychiatry, 5*, 76-80. doi:10.1111/j.1751-7893.2010.00251.

Glaser, B. (1992*). Basics of grounded theory analysis*. Sociology Press.

Glidden, L.M., Billings, F.J, & Jobe, B.M. (2006). Personality, coping style and well-being of parents rearing children with developmental disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research, 50,* 949-962. doi:10.1111/j.1365-2788.2006.00929.

Glinder, J. & Compas, B. (1999). Self-blame attributions in women with newly diagnosed breast cancer: a prospective study of psychological adjustment. *Health Psychology, 18,* 475- 481. doi:10.1037//0278-6133.18.5.475

Giorgi, A. & Giorgi, B. (2008). Phenomenology. En Smith, J. (Ed.), *Qualitative Psychology. A Practical Guide to Research Methods* (pp. 26-51). London: SAGE.

Gonzales, N., Tein, J., Sandler, I. & Friedman, R. (2001). On the limits of coping: interaction between stress and coping for inner-city adolescents. *Journal of Adolescent Research, 16,* 372-395. doi:10.1177/0743558401164005

González-Morales, M., Peiró, J. M., Rodríguez, I. & Greenglass, E. R. (2006). Coping and distress in organizations: The role of gender in work stress. *International Journal of Stress Management, 13*, 228-248. doi: 10.1037/1072-5245.13.2.228

Guomundsson, B., Ólafsson, E., Jakobsson, F. & Lúovigsson, P. (2010). Prevalence of symptomatic Charcot-Marie-Tooth disease in Iceland: a study of a well-defined population. *Neuroepidemiology, 34*, 13-17.

Gupton, A., Heaman, M. & Ashcroft, T. (1997) Bedrest form the perspective of the high-risk pregnant woman. *Journal of Obstetric, Gynecologic and Neonatal Nursing, 26,* 423-430. doi:10.1111/j.1552-6909.1997.tb02724.x

Gray, D. (2003). Gender and coping: the parents of children with high functioning autism. *Social Science and Medicine, 56,* 631-642. doi:10.1016/S0277-9536(02)00059-X

Green, J.M. & Murton, F.E. (1996). Diagnosis of Duchenne muscular dystrophy: parents experiences and satisfaction. *Child Care Health, 22 (2*), 113-128. doi:10.1046/j.1365-2214.1996.776776.

Greer, S. (1991). Psychological response to cancer and survival. *Psychological Medicine, 21,* 43-49. doi:10.1017/S003329170001463X

Greer, S. (2008). CBT for emotional distress of people with cancer: some personal observations. *Psycho-Oncology, 17,* 170-173. doi:10.1002/pon.1205

Greer, S. & Watson, M. (1987). Mental adjustment to cancer: its measurement and prognostic importance. *Cancer Surveys, 6*, 439-453.

Gross, J. & Muñoz, R. (1995). Emotion regulation and mental health. *Clinical Psychology Science and Practice, 2,* 151-164.

Gunnarsdottir, S., Donovan, H., Serlin, R., Voge, C. & Ward, S. (2002). Patient-related barriers to pain management: the barriers questionnaire II (BQ- II). *Pain, 99*, 385-396. doi:10.1016/S0304-3959(02)00243-9

Gupta, A. & Singhal, N. (2004). Positive perceptions in parents of children with disabilities. *Asia Pacific Disability Rehabilitation Journal, 15*, 22- 35.

Gutmann, D. (1974). The country of old men: cross-cultural studies in the psychology of later life. En R. Levine (Ed.), *Culture and personality: contemporary readings*. Chicago: Aldine.

Hack F. & Degner L. (2004). Coping responses following breast cancer diagnosis predict psychological adjustment three years later. *Psychooncology, 13,* 235-47.

Hagger, M. (2010). Sleep, self-regulation, self-control and health. *Stress and Health, 26,* 181-185. doi:10.1002/smi.1345

Hamama, L., Ronen, T. & Rahav, G. (2008). Self-control, self-efficacy, role overload and stress responses among siblings of children with cancer. *Health & Social Work, 33*, 121- 132. doi:10.1093/hsw/33.2.121

Hantaï, D., Richard, P., Koenig J. & Eymard, B. (2004). Congenital myasthenic syndromes. *Current Opinion in Neurology, 17,* 539, 551. doi:10.1097/00019052-200410000-00004

Hanzawa, S., Tanaka, G., Inadomi, H., Urata, M., & Ohta, Y. (2008). Burden and coping strategies in mothers of patients with schizophrenia in Japan. *Psychiatry & Clinical Neurosciences, 62*(3), 256-263. doi:10.1111/j.1440-1819.2008.01791.

Harland, N. & Georgieff, K. (2003). Development of the Coping Strategies Questionaire 24, a clinically utilitarian version of the Coping Strategies Questionnaire. *Rehabilitation Psychology, 48,* 4, 296-300. doi:10.1037/

Harper, D. & Peterson, D. (2000). Neuromuscular and musculoskeletal disorders in children. En Frank, R., Elliot, T. (Ed.), *Handbook of rehabilitation psychology*. Hardcover.

Hastings, R. & Taunt, H. (2002). Positive perceptions in families of children with developmental disabilities. *American Journal on Mental Retardation, 107*, 116-127. doi:10.1352/0895-8017(2002)107<0116:PPIFOC>2.0.CO;2

Hayes, S., Strosahl, K. & Wilson, K. (1999). *Acceptance and commitment therapy: an experiential approach to behavior change.* New York: Guildford.

Helicobacter Cancer Collaborative Group, (2001). Gastric cancer and Helicobacter pylori: a combine analysis of 12 case control studies nested within prospective cohorts. *Gut, 49,* 347-353.

Hernández, L. (1999). *Tesis: La realidad de los afectados por enfermedades neuromusculares de Bizkaia*. Bilbao: Facultad de C.C.P.P. y Sociología de la Universidad de Deusto.

Hill, P. & Pargament, K. (2008) Advances in the conceptualization and measurement of religion and spirituality: implications for physical and mental health research. *Psychology of Religion and Spirituality, 1*, 3-17. doi:10.1037/1941-1022.S.1.3

Hobfoll, S. & Lerman, M. (1988). Personal relationships, personal attributes and stress resistance: mothers´ reactions to their child´s illness. *American Journal of Community Psychology, 1*6, 565-589. doi:10.1007/BF00922772

Hodges, L. & Dibb, B. (2010). Social comparison within self-help groups. Views of parents of children with Duchenne muscular dystrophy. *Journal of Health Psychology, 15*, 483-492. doi: 10.1177/1359105309355491

Hoyt, M. (2009). Gender role conflict and emotional approach coping in men with cancer. *Psychology and Health, 24*, 981-996. doi:10.1080/08870440802311330

Holahan, C., Moos, R., Holahan, C., Brennan, P. & Schutte, K. (2005). Stress generation, avoidance coping and depressive symptoms: a 10 year model. J*ournal of Consulting and Clinical Psychology, 73*, 658-666. doi:10.1037/0022-006X.73.4.658

Holm, K., Patterson, J., Rueter, M. & Wamboldt, F. (2008). Impact of uncertainty associated with a child´s chronic health condition on parents´ health. *Families, Systems & Health, 26*, 282-295. doi:10.1037/a0012912

Holmes, T. & Rahe, R. (1967). The social readjustment rating scale. *Journal of Psychosomatic Research, 12*, 213-233. doi:10.1016/0022-3999(67)90010-4

Holmes, A. & Deb, P. (2003). The effect of chronic illness on the psychosocial health of family members. *The Journal of Mental Health Policy and Economics, 6*, 13-22.

Holroyd, J. & Guthrie, D. (1979). Stress in families of children with neuromuscular disease. *Journal of Clinical Psychology*, *35*, 734- 739. doi:10.1002/1097-4679(197910)35:4<734::AID-JCLP2270350408>3.0.CO;2-8

Holroyd, J. & Guthrie, D. (1986). Family stress with chronic childhood illness: cystic fibrosis, neuromuscular disease, and renal disease. *Journal of Clinical Psychology*, *42*,552-561.doi:10.1002/1097-4679(19860)

Horowitz, M. (1983). Psychological responses to serious life events. En Breznitz, S. (Ed.), *The denial of stress* (pp. 129–161). New York. International Universities Press.

Hubbard P., Broome M. & Antia L. (2005). Pain, coping and disability in adolescents and young adults with cystic fibrosis: a web-based study. *Pediatric Nursing, 31*, 82-86.

Hughes, M., Hicks, E., Nevin, N. & Patterson, V. (1996). The prevalence of inherited neuromuscular disease in Northern Ireland. *Neuromuscular Disorders, 6*, 1, 69-73. doi:10.1016/0960-8966(94)00017-4

Huisman, M., Van Doormaal, P., De Jong, S., Weinreich, S., Veldink, J. & Van Den Berg, L. (2009). The epidemiology of MND in the Netherlands, 2006-2008. *Journal of Neurology, 256.*

Instituto Nacional de Estadística. (1999). *Encuesta sobre Discapacidades, Deficiencias y Estado de Salud* (EDDES). Madrid: INE.

Instituto Nacional de Estadística. (2007). *Censos de población*. Madrid: INE.

Irvin, S. (2001). Waiting: concept analysis. *Nursing Diagnosis, 12*, 128-136. doi:10.1111/j.1744-618X.2001.tb00450.x

Janoff-Bulman, R. (1992). *Shattered assumptions: toward a new Psychology of trauma*. New York: Free Press.

Joachim, G. & Acorn, S. (2000). Stigma of visible and invisible chronic conditions. *Journal of Advanced Nursing, 21,* 243-248. doi:10.1046/j.1365-2648.2000.01466.x

Jonsen, E., Athlin, E. & Suhr, O. (2000). Waiting for a liver transplant: the experience of patients with familial amyloidotic polyneuropathy. *Journal of Clinical Nursing, 9,* 63-70. doi:10.1046/j.1365-2702.2000.00327.x

Juczynski, Z. (2001). *Evaluation tools in health promotion and psychology*. PTP, Warsaw.

Kaplan, D., Smith, A., Grobstein, R. & Fischman, S. (1977). Family mediation of stress. En Moos, R. (Ed.), *Coping with physical illness* (pp. 60-69). New York: Plenum medical Book Company.

Karademas, E. & Hondronikola, I. (2010). The impact of illness acceptance and helplessness to subjective health and their stability over time: prospective study in a sample of cardiac patients. *Psychology, Health & Medicine, 15,* 336-346. doi:10.1080/13548501003668265

Kashdan, T., Barrios, V., Forsyth, J. & Sterger, M. (2006). Experiential avoidance as a generalized psychological vulnerability: comparisons with coping and emotion regulation strategies. *Behaviour Research and Therapy, 44,* 1301-1320. doi:10.1016/j.brat.2005.10.003

Kazak, A. E., & Nachman, G. S. (1991). Family research on childhood chronic illness: Pediatric oncology as an example. *Journal of Family Psychology, 4,* 462-483. doi:10.1037/0893-3200.4.4.462

Kelly, M., Sereika, S., Battista, D. & Brown, C. (2007). The relationship between beliefs about depression and coping strategies: gender differences. *British Journal of Clinical Psychology, 46,* 315-332. doi:10.1348/014466506173070

Kliegman R., Behrman R., Jenson H. & Stanton B. (2007). Muscular dystrophies. In: Kliegman R., Behrman R., Jenson H., Stanton B. (Eds.), *Nelson Textbook of Pediatrics.* Philadelphia: Saunders Elsevier.

Kübler-Ross, E. (2000). What is it like to be dying? *American Journal of Nursing, 100,* 96.

Koening, H., Larson, F. & Larson, L. (2001). Religion and coping with serious medical illness. *The Annals of Pharmacotherapy, 35*, 352- 358.

Kornfeld, M. y Siegel, I. (1980). Parental group therapy in the management of a fatal childhood disease. *Health and Social Work, 4,* 3, 99- 118.

Kortte, K., Weneger, S. & Chwalisz, K. (2003). Anosognosia and denial: their relationship to coping and depression in acquired brain injury. *Rehabilitation Psychology, 48*, 131-136.

Kriegsman, K. & Celotta, B. (1981). Creative coping: A program of counseling for women with physical disabilities. *Journal of Rehabilitation*, *36*, 39. doi:10.1007/BF01277434

Krizan, Z. & Windschitl, P. (2009) Wishful thinking about the future: does desire impact optimism? *Social and Personality Psychology Compass, 3*, 1- 17.

Hardy, M. & Bryman A. (2004). *Handbook of data analysis*. London: Sage Publications.

Hill, R. (1949). *Families under stress*. Connecticut: Greenwood Press.

Holroyd, J. (1974). The Questionnaire on Resources and Stress: An Instrument to Measure Family Response to a Handicapped Family Member. *Journal of Community Psychology* 2, 734–9.

Holroyd, J. (1987). *Questionnaire on resources and stress for families with chronically ill or handicapped members*. Brandon: Clinical Psychology Publishing Co.

Husserl, E. (1913). *Logical Investigations, I and II*. New York: Humanities Press.

Jáuregui, I., Garrido, O., Santiago-Fernández, M. & Bautista, A. (2010). Social comparison as a coping strategy among caregivers of eating disorder patients. *Journal of Psychiatric and Mental Health Nursing, 17,* 775-782.

Janoff-Bulman, R. (1992). *Shattered assumptions: towards a new Psychology of trauma*. Free Press: New York.

Janoff-Bulman, R. (2004). Posttraumatic Growth: Three Explanatory Models. *Psychological Inquiry, 15,* 30-34.

Jones, F. y Bright, J. (2001). *Stress: Myth, Theory and Research*. Nueva York: Prentice-Hall.

Kaplan, D. & Mason, E. (1960). Maternal reactions to premature birth viewed as an acute emotional disorder. *American Journal of Orthopsychiatry, 30,* 539-547.

Kesimci, A., Göral, S. & Gencöz, T. (2005). Determinants of stress-related growth: gender, stressfulness of the event and coping strategies. *Journal of Current Psychology, 24,* 68-75.

Knafl, K., Deatrock, J. & Gallo, A. (2008). The interplay of concepts, data and methods in the development of the Family anagement Style Framework. *Journal of Family Nursing, 14,* 412-428.

Labrador, F. J. (1992). *El estrés. Nuevas técnicas para su control.* Madrid: Ed. Temas de Hoy.

Lachapelle, D & Hadjistavropoulos, T. (2005). Age-related differences among adults coping with pain: evaluation of a developmental life-context model. *Canadian Journal of Behavioural Science, 37,* 123-137. doi:10.1037/h0087250

Lakey, B. & Orehek, E. (2011). Relational regulation theory: a new approach to explain the link between perceived social support and mental health. *Psychological Review, 118,* 482-495.

Landgraf, J., Abetz, L. & Ware, J. (1996). *Child health Questionnaire (CHQ): a User´s Manual*. Boston, M.A. HealthAct.

Landis, J. R. & Koch, G. (1977). The measurement of observer agreement for categorical data. *Biometrics, 33,* 159-174.

Lavee, Y. & May-Dan, M. (2003). Patterns of change in marital relationships among parents of children with cancer. *Health & Social Work, 28*, 255-263.

Lázaro, E., Amayra, I, López Paz, J. F., De la Cruz, A. & Alday E. (2009). Psychosocial Online program directed to parents of children and teenagers with neuromuscular disease. *Journal of eHealth Technology and Application, 7*, 2, 78-81 (JETA, ISSN 1881-4581).

Lazarus, R. (1966). *Psychological stress and the coping process.* Nueva York: McGraw-Hill.

Lazarus, R. (1983). Costs and beneficial of denial. En Breznitz, S. (Ed.), *The denial of stress* (pp. 1-30). New York: International Universities Press.

Lazarus, R. (2000). Evolution of a model of stress, coping and discrete emotions. In Rice, V. (Ed.), *Handbook of stress, coping and health* (pp.195-222). Thousand Oaks.

Lazarus, R. S. & Cohen, J. B. (1977). Environmental stress. En Altman & Wohlwill (Eds.), *Human behaviour and the environment: Current theory and research*. New York: Plenum.

Lazarus, R. & Folkman, S. (1984). *Stress, appraisal and coping*. New York: Springer.

Lazarus, R. & Folkman, S. (1986). *Estrés y procesos cognitivos*. Martínez Roca Ed.

Lazarus, R. (1993). Coping theory ad research: past, present and future. *Psychosomatic Medicine, 55*, 234-247.

Lazarus, R. (1993). From psychological stress to the emotions: a history of changing outlooks. *Annual Review of Psychology, 44*, 1-21.

Lazarus, R. (1999). *Stress and emotion: a new synthesis*. London: Free Association Books.

Lazarus, R. (2012). Evolution of a model of stress, coping and discrete emotions. En Hill-Rice, V. (Ed.), *Stress, Coping and Health. Implications for nursing research, theory and practice* (pp. 199-226). Thousand Oaks, Sage.

Lefcourt, H. (1992). Perceived control, personal effectiveness and emotional states. In Carpenter, B. (Ed.) *Personal coping. Theory, research and application* (pp. 111-131). London: Praeger Publishers.

Lewis, L. (2004). Mourning, insight and reduction of suicide risk in schizophrenia. *Bulletin of the Menninger Clinic, 68*, 231-244.

Liegey, A. (1999). *Wishful thinking coping*. Thesis dissertation: University of Pittsburgh.

Lindemann, J. (1987). *Psychological and behavioral aspects of physical disability*. New York: Plenum Press.

Linley, A. & Joseph, S. (2004). Positive change following trauma and adversity: a review. *Journal of Traumatic Stress, 17*, 11-21.

Livneh, H. (2009). Denial of chronic illness and disability. Part I. Theoretical, functional and dynamic perspectives. *Rehabilitation Counseling Bulletin, 52*, 225-236.

Livneh, H., Lott, S. & Antonak, R. (2004). Patterns of psychosocial adaptation to chronic illness and disability: a cluster analytic approach. *Psychology, Health & Medicine, 9,* 411-430.

Livneh, H. & Sherwood, A. (2001). Application of personality theories and counseling strategies to clients with physical disabilities. *Journal of Counseling & Development, 69,* 525- 538.

Livneh, H., Wilson, L. & Pullo, R. (2004). Group counseling for people with physical disabilities. *Focus on Exceptional Children, 36,* 6, 1- 18.

Locock, L. & Brown, J. (2010). All in the same boat? Patient and carer attitudes to peer support and social comparison in Motor Neurone Disease (MND). *Social Science & Medicine, 71,* 1498-1505.

Lode, K., Larsen, J., Bru, E., Klevan, G., Myht, K. & Nyland, H. (2007). Patient information and coping styles in multiple sclerosis. *Multiple Sclerosis, 13,* 792-799.

Londoño, N., Henao López, G., Puerta, I., Posada, S., Arango, D. & Aguirre-Acevedo, D. (2006). Propiedades psicométricas y validación de la Escala de Estrategias de Coping Modificada (EEC-M) en una muestra colombiana. *Universitas Psychologica, 5,* 327-349.

Longo, E., Moreno, Mª T. & Sousa, J.M. (2005). Qualidade de vida de crianças e adolescentes com distrofia muscular de Duchenne. *Pediatria (São Paulo), 27,* 28-37.

López, A., Esteve, R. & Ramírez, C. (2008). Perceived social support and coping responses are independent variables eplaining pain adjustment among chronic pain patients. *The Journal of Pain, 9,* 373-379.

López Paz, J. F., Amayra, I., Lázaro, E., De la Cruz, A. & Alday, E. (2009). Effectiveness of a Psycho-educational Online Program directed to children and

teenagers with Neuromuscular Disease. *Journal of eHealth Technology and Application, 7,* 2, 72-77.

Lovallo, W. (1997). *Stress and Health. Biological and Psychological interactions.* London: Sage Publications.

Lumsden, D. (1981). Is the concept of stress of any use, anymore? En Randall, D. (Ed), *Contributions to primary prevention in mental health: working papers*. Toronto: Toronto National Office of the Canadian Mental Health Association.

Luyck, K., Vanhalst, J., Seiffge-Krenke, I., & Weets, I. (2010). A typology of coping with Type 1 diabetes in emerging adulthood: associations with demographic, psychological, and clinical parameters. *Journal of Behavioral Medicine, 33*(3), 228-238. doi:10.1007/s10865-010-9249-9

Mah, J., Thannhauser, J., McNeil, D. & Dewey, D. (2008). Being the lifeline: the parent experience of caring for a child with neuromuscular disease on home mechanical ventilation. *Neuromuscular Disorders, 18,* 983-988.

Mahoney F. & Barthel, D. (1965). Functional evaluation: the Barthel Index. *Maryland State Medical Journal, 14,* 56–61.

Mailick, M., Greenberg, J. & Floyd, F. (2004). Accomodative coping and well-being of midlife parents of children with mental health problems or developmental disabilities. *American Journal of Orthopsychiatry, 74,* 187-195.

Malcarne, V. & Greenbergs, H. (1996). Psychological adjustment to systemic sclerosis. *Arthritis Care and Research, 9,* 51-59.

Martin, S., Calabrese, S., Wolters, P., Walker, K., Warren, K & Hazra, R. (2012). Family functioning and coping styles in families of children with cancer and HIV disease. *Clinical Pediatrics, 51,* 58-64.

Marvin, R & Pianta, R. (1996). Mother´s relations to their child´s diagnosis: relations with security of attachment. *Journal of Clinical Child Psychology, 25*, 4, 436-445. doi:10.1207/s15374424jccp2504_8

Mattson, A. (1990). *Long-term physical illness in childhood: a challenge to psychosocial adaptation*. En Power, P. & Del Orto, A. (1980). Role of the family in the rehabilitation of the physically disabled. Baltimore: University Park Press.

McCracken, L. & Eccleson, C. (2003). Coping or acceptance: what to do about chronic pain? *Pain, 105*, 197-204.

McCracken, L. & Eccleston, C. (2005). A prospective study of acceptance and patient functioning with chronic pain. *Pain, 118*, 164-169.

McCracken, L. & Gauntlett-Gilbert, J. (2011). The role of psychological fleibility in parents of adolescents with chronic pain: development of a measure and preliminary correlation analyses. *Pain, 152*, 780-785.

McCubbin H., Olson DH., Larsen A., Corcoran K. & Fischer J. (2000). *Family crisis orientated personal evaluation scales, F-COPES*. (1987, 1991). Measures for clinical practice: A sourcebook. 3rd Ed. (2vols.), NY, Free Pr.

McCubbin, M., Balling, K., Possin, P., Frierdich, S. & Bryne, B. (2002). Family Resiliency in Childhood Cancer. *Family Relations, 51*, 103-111.

McCubbin, H.I., McCubbin, M.A., Patterson, J.M., Cauble, A.E., Wilson, L.R. & Warwick, W. (1983). CHIP-Coping Health Inventory for Parents: An Assessment of Parental Coping Patterns in the Care of the Chronically Ill Child. *Journal of Marriage and the Family*, 359-370.

McCubbin, H. & Patterson, J. (1982). Family adaptation to crises. En McCubbin, H. Cauble, A. & Patterson., J. (Eds.), *Family stress, coping and social support* (pp.26-47). Springfield: Charles Thomas.

McCubin, H. & Dhal, B. (1985). *Marriage and family: individuals and life cicles*. New York: John Wiley.

McCubbin, M. & McCubbin, H. (1993). Family coping with health crisis: the resilience model of family stress, adjustment and adaptation. En Danielson, C., Hamel-Bissell, B. & Winstead-Fry, P. (Eds.), *Families Health and Illness* (pp. 21-64). Mosby, St. Louis.

McCubbin, M.A., McCubbin, H.I., Thompson, A.I., Han, S., & Allen, C.T. (1997). *Families under stress: What makes them resilient*. American Association of Family and Consumer Sciences Commemorative Lecture: Washington, DC.

McCubbin H., Thompson A. & McCubbin M. (2001). *Family Measures: Stress, Coping, and Resiliency. Inventories for Research and Practice.* Honolulu, Hawaii: Kamehameha Schools.

McCullough, M. & Willoughby, B. (2009). Religion, self-regulation and self-control: associations, eplanations and implications. *Psychological Bulletin, 135,* 69-93.

McIntosh, F., Cohen, R. & Wortman, C. (1993). Religion´s role in adjustment to a negative life event: coping with the loss of a child. *Journal of Personality and Social Psychology, 65*, 812-821.

Meyer, B. (2001). Coping with severe mental illness: relations of the brief COPE with symptoms, functioning and well-being. *Journal of Psychopathology and Behavioral Assessment, 23*, 265-277.

Miles, M. & Crandall, E. (1983). The search for meaning and its potential affecting growth in bereaved parents. *Health Values: Achieving High Level Wellness, 7*, 19-23.

Miner, M. & McKnight, J. (1999). Religious attributions: situational factors and effect on coping. *Journal for the Scientific Study of Religion, 38*, 274-286.

Ministerio de Sanidad y Política Social. (2009). *Estrategia en Enfermedades Raras del Sistema Nacional de Salud. Consejo Interterritorial del Sistema Nacional de Salud.* Madrid: IMGRAF Impresores.

Ministerio de Trabajo y Asuntos Sociales. (2000). *Base de Datos Estatal de Personas Con Discapacidad.* Madrid: Observatorio de la Discapacidad.

Monterosso, L., Kristjanson, L., Aoun, S. & Phillips, M. (2007). Supportive and palliative care needs of families of children with life-threatening illnesses in Western Australia: evidence to guide the development of a palliative care service. *Palliative Medicine, 21*, 689-696.

Moos, R. (Ed.), (1977). *Coping with physical illness*. New York: Plenum Medical Book Company.

Moos, R. (Ed.), (1989). *Coping with physical illness 2: New Perspectives*. New York: Plenum Medical Book Company.

Moos, R. (1993). *Coping Responses Inventory Adult Form. Professional Manual*. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources.

Moos, R. & Holahan, C. (2003). Dispositional and contextual perspectives on coping: toward and integrative framework. *Journal of Clinical Psychology, 59*, 1387-1403.

Moos, R. & Moos, B. (1981). *Family Environment Scale Manual*. Palo Alto, CA: Consulting Psychologists Press.

Moos, R. & Schaefer, J. (1984). The crisis of physical illness: an overview and conceptual approach. En Moos (Ed). *Coping with physical illness: new perspectives* (pp. 3-25). New York: Plenum.

Moos, R. & Schaefer, J. (1993). *Coping resources and processes: current concepts and measures.* En Goldberger, L. & Breznitz, S. (Eds.), Handbook of stress: theoretical and clinical aspects (pp. 234-257). New York: Free Press.

Moos, R. & Tsu, V. (1977). The crisis of Physical illness: an overview. En Moos, R. (Ed.), *Coping with physical illness* (pp. 3-21). New York: Plenum Medical Book Company.

Morison, J., Bromfield, L. & Cameron, H. (2003). A therapeutic model for supporting families of children with a chronic illness or disability. *Child and Adolescent Mental Health*, *8*, 2, 125- 130. doi:10.1111/1475-3588.00058

Morocutti, C., Colazza, G., Soldati, G., D´Alessio, C., Damiano, M., Casali C. & Pierelli. F. (2002). Charcot-Marie-Tooth disease in Molise, a central-Southern Region of Italy: an epidemiological study. *Neuroepidemiology, 21*, 241-245. doi:10.1159/000065642

Morrow, R. & Cohen, J. (1954). The psychosocial factors in muscular dystrophy. *Journal of Child Psychiatry, 3*, 70-80.

Moses, T. (2010). Exploring parents´ self-blame in relation to adolescents´ mental disorders. *Family Relations, 59*, 103-120.

Moskowitz, J. & Wrubel, J. (2000). *Apples and oranges: using qualitative and quantitative approaches to coping assessment.* American Psychological Society. Miami.

Mostacciuolo, M., Miorin, M., Martinello, F., Angelini, C., Perini, P. & Trevisan, C. (1996). Genetic epidemiology of congenital dystrophy in a simple form north-east Italy. *Human Genetics, 97,* 277-279. doi:10.1007/BF02185752

Naidoo, R. (1984). Counseling parental with handicapped children. *British Journal of Prospective Psychology and Personality Study, 29*, 1, 13- 16.

Nakano, K. (1995). Assessment of self-control behaviour: validity analyses on a Japanese version of the self-control schedule. *Journal of Clinical Psychology 51,* 378-382l.

National Institute of Neurological Disorders and Stroke. (2002). *Charcot-Marie-Tooth Disease.* Bethesda, Maryland.

Nätterlund, B. & Ahlström, G. (1997). Problem - focused coping and satisfaction with activities of daily living in individuals with muscular Dystrophy and Postpolio syndrome. *Scandinavian Journal Caring Sciences, 13*, 26- 32.

Nätterlund, B. & Ahlström, G. (1999). Experience of social support in rehabilitation: a phenomenological study: Issues and innovations in nursing practice. *Journal of Advanced Nursing, 30*, 6, 1332- 1340.

Nätterlund, B. & Ahlström, G. (2001). Activities of Daily living and quality of life in persons with muscular dystrophy. *Journal of Rehabilitation Medicine, 33*, 206- 211.

Nätterlund, B., Gunnarsson, L. & Ahlström, G. (2000). Disability, coping and quality of life in individuals with muscular dystrophy: a prospective study over five years. *Disability and Rehabilitation*, *22*, 776- 785.

Nätterlund, B. (2001). Living with Muscular dystrophy: illness experience, activities of daily living, coping, quality of life and rehabilitation. *Scandinavian Journal of Occupational Therapy*, *8*, 157.

Nätterlund, B., Sjöden, P. & Ahlström, G. (2001). The illness experience of adult persons with muscular dystrophy. *Disability and rehabilitation*, *23*, 788- 798. doi:10.1080/110381201750464511

Nereo, N., Fee, R. & Hinton, V. (2003). Parental stress in mothers of boys with Duchenne Muscular Dystrophy. *Journal of Pediatric Psychology, 28*, 473- 484. doi:10.1097/00004703-200304000-00004

Newman, J. & Pargament, K. (1990). The role of religion in the problem solving process. *Review of Religious Research, 31*, 390-404. http://dx.doi.org/10.2307/3511564

Nieto, J. Torres, Ana I. & Abad Mª. A. (2003). *Estudio empírico sobre calidad de vida en niños con una enfermedad crónica*. (Premio Nacional de Investigación Diego Manzano López). Murcia: Universidad de Murcia.

Nolen-Hoeksema, S. (2006). The etiology of gender differences in depression. In Mazure, C., Keita, G. (Eds), *Understanding depression in women: Applying empirical research to practice and policy*. Washington, DC, US: American Psychological Association. doi: 10.1037/11434-000.

Northouse, L. (1988). Social support in patients´ and husbands´ adjustment to breast cancer. *Nursing Research, 37,* 91-95.

Norwood, F., Harling, Chinnery, C., Eagle, M., Bushby, K. & Straub, V. (2009). Prevalence of genetic muscle disease in Northern England: in depth analysis of a muscle clinic population. *Brain, 132*, 3175- 3186. doi:10.1093/brain/awp236in

Ohaeri, J. & Fido, A. (2001). The opinion of caregivers on aspect of schizophrenia and major affective disorders in a Nigerian setting. *Social Psychiatry & Psychiatric Epidemiology, 26*, 493-499.

Olshansly, S. (1952). Chronic sorrow: a response to having a mentally defective child. *Social Casework, 43*, 190-193.

Olson, M. (1997). Social support bereavement crisis. A study of interaction in crisis situations. *Interpersonal Perspectives on Social Work in Health Care, 25*, 117-130.

Organización Mundial de la Salud (1992). *CIE-10. Trastornos Mentales y del Comportamiento. Décima Revisión de la Clasificación Internacional de las Enfermedades*. Ginebra: Organización Mundial de la Salud.

Osborne, R., Elsworth, G., Kissane, D., Burke, S. & Hopper, J. (1999). The Mental Adjustment to Cancer (MAC) scale: rexplication and refinement in 632 breast

cancer patients. *Psychological Medicine, 29,* 1335-1345. http://dx.doi.org/10.1017/S0033291799001142

Padrone, F. (1994). Psychotherapeutic issues with family members with physical disabilities. *American Journal of Psychotherapy, 48,* 2, 195- 207.

Panagopoulou, E., Kersbergen, B., & Maes, S. (2002). The effects of emotional (non-) epression in (chronic) disease: A meta-analytic review. *Psychology & Health, 17*, 529-545. doi:10.1080/08870440290025759

Pargament, K & Hahn, J. (1986). God and the just world: causal and coping attributions to God in health situations. *Journal for the Scientific Study of Religion, 25*, 193-207. http://dx.doi.org/10.2307/1385476

Pargament, K., Kennell, N., Grevengoed, W., Hathaway, J., Newman, J. & Jones, W. (1988). Religion and problem solving: three styles of coping. *Journal for the Scientific Study of Religion, 27*, 90-104. http://dx.doi.org/10.2307/1387404

Pargament, K. (1997). *The psychology of religion and coping. Theory, research and practice.* New York: the Guildford Press.

Pargament, K., Koenig, H. & Pérez, L. (2000). The many methods of religious coping development and initial validation of the RCOPE. *Journal of Clinical Psychology, 56,* 519-543.

Pargament, K. & Mahoney, A. (2002). Spirituality: the discovery and conservation of the sacred. En Snyder, C & López, S. (Eds.), *Handbook of positive psychology*. New York: Oford University Press.

Park, C., Cohen, L. & Murch, R. (1996). Assessment and prediction of stress-related growth. *Journal of Personality, 64,* 71-105.

Park, C. & Helgeson, V. (2006). Introduction to the special section: growth following highly stressful life events. Current status and future directions. *Journal of*

Consulting and Clinical Psychology, 74, 791-796. http://dx.doi.org/10.1037/0022-006X.74.5.791

Parkerson, G. ed. (2002). *User's Guide for Duke Health Measures.* Durham, NC: Department of Community and Family Medicine, Duke University Medical Center.

Pardo, A. (1989). Aspectos psicológicos de las enfermedades neuromusculares. *Polibea, 17*, 34- 35.

Paster, A., Brandwein, D. & Walsh, J. (2009). A comparison of coping strategies used by parents of children with disabilities and parents of children without disabilities. *Research in Developmental Disabilities, 30*, 1337-1342. http://dx.doi.org/10.1016/j.ridd.2009.05.010

Patterson, J. & McCubbin, H. (1983). Chronic illness: family stress and coping. In McCubbin (Ed.), *Stress and the family: Volume II: coping with catastrophe.* New York: Brunner-Mazel.

Patton, M. (2002). *Qualitative Research & Evaluation Methods*. 3º Edition, Thousand Oaks: Sage.

Pearlin, L. & Schooler, C. (1978). The structure of coping. *Journal of Health and Social Behavior, 19*, 2-21.

Pelchat, D., Lefebvre, H., & Perreault, M. (2003). Differences and similarities between mothers' and fathers' experiences of parenting a child with a disability. *Journal of Child Health Care, 7*, 231-247.http://dx.doi.org/10.1177/13674935030074001

Penley, J., Tomaka, J. & Wiebe, J. (2002). The association of coping to physical and psychological health outcomes: a meta-analytic review. *Journal of Behavioral Medicine, 6*, 551-603.

Pennebaker J. W. (1995). *Emotion, Disclosure & Health.* American Psychological Association.

Petersen, C., Schmidt, S., Bullinger, M. & the DISABKIDS group (2004). Brief report: development and pilot testing of a coping questionnaire for children and adolescents with chronic health condictions. *Journal of Pediatric Psychology, 29*, 635-640.

Peterson, C., & Seligman, M. (1987). Explanatory style and illness. *Journal of Personality, 55*, 237-265.

Piccininni, M., Falsini, C. & Pizzi, A. (2004). Quality of life in hereditary neuromuscular diseases. *Acta Neurologica Scandinavica, 109*, 113- 119. doi:10.1046/j.1600-0404.2003.00185.

Pino, R., Frías, A., Palomino, P. & Pancorbo, P. (2011). Coping and subjective burden in caregivers of older relatives: a quantitative systematic review. *Journal of Advanced Nursing, 67*, 2311-2322.

Posluszny, D., Hyman, K. & Baum, A. (1998). *Groups interventions in cancer. The benefits of social support and education on patient adjustment*. En Tindale, R., Heath, L., Edwards, J. (Eds.), Theory and Research on Small Groups. USA: Kluwer Academic Publishers.

Power, P. & Del Orto, A. (1980). *Role of the family in the rehabilitation of the physically disabled*. Baltimore: University Park Press.

Poysky, J. & Kinnett, K. (2009). Facilitating family adjustment to a diagnosis of Duchenne muscular dystrophy: April 24-25, 2008, Miami, Florida. *Neuromuscular Disorders, 19*, 733-738. http://dx.doi.org/10.1016/j.nmd.2009.07.011

Prati, G. & Pietrantoni, L. (2009). Optimism, social support and coping strategies as factors contributing to posttraumatic growth: a meta-analysis. *Journal of Loss and Trauma, 14*, 364-388.

Ptacek, J., Smith, R. & Zanas, J. (1992). Gender, appraisal and coping: a longitudinal analysis. *Journal of Personality, 60*, 474-752. http://dx.doi.org/10.1111/j.1467-6494.1992.tb00272.x

Quay, H. & Peterson, D. (1982). *Manual of the Revised Behaviour Problem Checklist*. University of Miami Press, Miami.

Querejeta, M. (2003). Discapacidad/ Dependencia: unificación de criterios de valoración y clasificación. Madrid: Observatorio de la Discapacidad: Ministerio de Trabajo y Asuntos Sociales.

Radnitz, C. & Tiersky, L. (2007). *Psychodynamic and cognitive therapies*. En Martz, E. y Livneh, H. (eds.), Coping in chronic illness and disability. Springer.

Ran, Y. & McCubbin, M. (2002). Family stress, perceived social support and coping following the diagnosis of a child´s congenital heart disease. *Journal of Advanced Nursing, 39*, 190-198.

Ratigan, B. (1997). Counseling in groups. En Palmer, S. & MacMahon, G. (eds), *Handbook of counselling.* Routledge Ed.

Ray, C. (1992). Positive and negative social support in a chronic illness. *Psychological Reports, 71,* 977-978.

Reid, D. & Renwick, R. (2001). Relating familial stress to the psychosocial adjustment of adolescents with DMD. *International Journal of Rehabilitation Research, 24*, 83-93. doi:10.1046/j.1600-0404.2003.00185.

Richardson, A., Adner, N. & Nordström, G. (2001). Persons with insulin-dependent diabetes mellitus: acceptance and coping ability. *Journal of Advanced Nursing, 33*, 758-763. http://dx.doi.org/10.1046/j.1365-2648.2001.01717.x

Ritchie, A. & Lewis, J. (2003). *Qualitative research practice. A guide for social science students and researchers*. London: Sage Publications.

Rodero, B., Casanueva, B., Luciano, J., Gili, M., Serrano-Blanco, A. & García-Campayo, J. (2011). Relationship between behavioral coping strategies and acceptance in patients with fibromyalgia syndrome: elucidating targets of interventions. *BMC Musculosketal Disorders, 12,* 143-154.

Rodríguez-Marín, J., Terol, M. C., López-Roig, S. & Pastor, M. A. (1992). Evaluación del afrontamiento del estrés: propiedades psicométricas del cuestionario de formas de afrontamiento de acontecimientos estresantes. *Revista de Psicología de la Salud, 4*, 59-84.

Rodríguez-Marín, J., Pastor, M. A. & López-Roig, S. (1993). Afrontamiento, apoyo social, calidad de vida y enfermedad. *Psicothema, 5*, 349-372.

Roesch, S. & Weiner, B. (2001). A meta-analytic review of coping with illness: do causal attributions matter? *Journal of Psychosomatic Research, 50,* 205-219.

Romitti, P, Puzhankara, S., Mathews, K., Zamba, G., Cunniff, C., Andrews, J., Matthews, D., James, K., Miller, L., Druschel, C., Fo, D., Pandya, S., Ciafaloni, E., Adams, M., Mandel, D., Street, N., Ouyang, L., Constantin, C. & Costa, P. (2009). Prevalence of Duchenne/Becker Muscular Dystrophy among males aged 5–24 years, Four States, 2007. *Morbidity & Mortality Weekly Report 58,* 1119-1122. doi:10.1016/j.jpeds.2009.02.007

Rosenbaum, M. (2000). The self-regulation of experience: openness and construction. En Dewe, P., Leiter, A & Co, T. (Eds.), *Coping and health and organization*. London: Taylor & Francis.

Rosenstiel, A. & Keefe, F. (1983). The use of cognitive coping strategies in chronic low back pain patients: relationship to patient characteristics and current adjustment. *Pain, 17,* 33-44. http://dx.doi.org/10.1016/0304-3959(83)90125-2

Rossi Ferrairo, S., Baiardi, P. & Zotti, A. (2004). Update on the family strain questionnaire: a tool for the general screening of caregiving-related problems. *Quality of Life Research, 13,* 1425-1434.

Rubinsztein, J., Rubinsztein, D., Goodburn, S. & Holland, A. (1998). Apathy and hypersomnia are common features of myotonic dystrophy. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry, 64,* 510- 515. doi:10.1136/jnnp.64.4.510

Rutter, M. (1987). Psychosocial resilience and protective mechanisms. *American Journal of Orthopsychiatry, 57,* 316-331.

Samson, A., Tomiak, E., Dimillo, J., Lavigne, R., Miles, S., Choquette, M., Chakraborty, P. & Jacob, P. (2009). The lived experience of hope among parents of a child with Duchenne muscular dystrophy: perceiving the human being beyond the illness. *Chronic Illness, 5,* 103-114. http://dx.doi.org/10.1177/1742395309104343

Sanders, C. (1980). A comparison of adult bereavement in the death of a spouse, child and parent. *Omega, 10,* 303-319.

Sandín, B. & Chorot, P. (2003). Cuestionario de afrontamiento del estrés (CAE): desarrollo y validación preliminar. *Revista de Psicopatología y Psicología Clínica, 6,* 39-54.

Sandín, B, Valiente, R. & Chorot, P. (1999). Evaluación del estrés psicosocial. En Sandín, B. (Ed.). *El estrés psicosocial: conceptos y consecuencias clínicas*, 245-316. Madrid: Universidad Nacional Educación a Distancia.

Sanz, J & Vázquez, C. (1997). Fiabilidad, validez y datos normativos del Inventario para la depresión de Beck. *Psicothema, 10,* 2, 303-318.

Sarnat, H. (2000). Enfermedades neuromusculares. En Behrman, R., Kliegman, R. & Jenson, H. (eds), Tratado de pediatría. McGraw- Hill Interamericana.

Schaefer, A., McFaland, R., Blakely, E., He, L., Whittaker, R., Taylor, R., Chinnery, P. & Turnbull, D. (2008). Prevalence of mitochondrial DNA disease in adults. *Annals of Neurology, 63,* 1, 35-39. doi:10.1002/ana.21217

Shaefer, J. & Moos, R. (1992). *Life crises and personal growth*. En Carpenter, B. (Ed.) Personal coping. Theory, research and application. London: Praeger Publishers.

Schaefer, J. & Moos, R. (1998). Optimism, social support and coping strategies as factors contributing to posttraumatic growth: a meta-analysis. *Journal of Loss and Trauma, 14,* 364-388.

Schanowitz, J. & Nicassio, P. (2006). Predictors of positive psychosocial functioning of older adults in residential care facilities. *Journal of Behavioral Medicine, 29,* 191-201.

Shapiro, J., Pérez, M. & Warden, M. (1998). The importance of family functioning to caregiver adaptation in mothers of child cáncer patients: testing a social ecological model. *Journal of Pediatric Oncology Nursing, 15,* 47-54. http://dx.doi.org/10.1177/104345429801500107

Scheier, M., Carver, C. & Bridges, M. (1994). Distinguishing optimism from neuroticism (and trait anxiety, self-mastery and self-steem): a reevaluation of the Life Orientation Test. *Journal of Personality and social Psychology, 67,* 1063-1078.

Schenker, Y., Stewart, A., Na, B. & Whooley, M. (2009). Depressive symptoms and perceived doctor-patient communication in the heart and coul study. *Journal of General Internal Medicine, 24,* 550-556.

Schnoll, R., Harlow, L., Brandt, U. & Stolbach, L. (1998). Using two factor structures of the Mental Adjustment to Cancer (MAC) scale for assessing adaptation to breast cancer. *Psycho-Oncology, 7,* 424-435.

Schmidt, S., Petersen, C. & Bullinger, M. (2002). Coping with chronic disease from the perspective of children and adolescents: a conceptual framework and its implications for participation. *Child: Care, Health & Development, 29,* 1, 63-75. doi:10.1002/ana.21217

Schneider, M. (2000). *The role of self-blame attributions in coping with achievement failure: a proposed mediation model.* Tesis Doctoral. Universidad de Chicago.

Schneiderman, L., McCabe, P. & Baum, A. (1992). *Perspectives in behavioral medicine. Stress and disease processes*. Lodon: Lawrence Erlbaum Associates.

Schreurs, K. & Ridder, D. (1997). Integration of coping and social support perspectives: implications for the study of adaptation to chronic diseases. *Clinical Psychology Review, 17,* 89-112.

Schroevers, M., Kraaij, V. & Garnefski, N. (2011). Cancer patients' experience of positive and negative changes due to the illness: relationships with psychological well-being, coping, and goal reengagement. *Psycho-Oncology, 20,* 165–172. doi: 10.1002/pon.1718

Sears, S., Stanton, A. & Danoff-Burg, S. (2003). The Yellow Road and Emeral city: benefit finding, positive reappraisal coping and posttraumatic growth in women with early stage breast cancer. *Health Psychology, 22,* 487-497.

Selye, H. (1956). *The stress of life.* Nueva York: McGraw-Hill.

Selye, H. (1982). History and present status of the stress concept. En Goldberger, L & Breznitz, S. (Eds.), *Handbook of stress: theoretical and clinical aspects* (pp.7-17). New Uork: The Free Press.

Shibre, T., Negash, A., Kullgren, G., Kebede, D., Alem, A., Fekadu, A., et al., (2001). Perception of stigma among family members of individuals with schizophrenia and

major affective disorders in rural Ethiopia. *Social Psychiatry & Psychiatric Epidemiology, 36,* 299-303.

Shiota, M. & Levenson, R. (2009). Effects of aging on experimentally instructed detached reappraisal positive reappraisal and emotional behaviour suppression. *Psychology and Aging, 24,* 890-900.

Siemerink, E., Jaspers, J., Plukker, J., Mulder, N. & Hospers, G. (2011). Retrospective denial as a coping method. *Journal of Clinical Psychological Medical Settings, 18,* 65-69. http://dx.doi.org/10.1007/s10880-011-9223-x

Sigall, H., Kruglanski, A., Stangor, C. & Fyok, J. (1997). *Wishful thinking: individuals differ in how much their motivation affects their cognition*. Unpublished manuscript, University of Maryland, College Park.

da Silva, F., Jacob, E. & Castanheira, L. (2010). Impact of childhood cancer on parents´relationships: an integrative review. *Journal of Nursing Scholarship, 42,* 250-261. doi:10.1111/j.1547-5069.2010.01360.x

Silver, R. & Wortman, C. (1987). *The role of positive emotions in the coping process.* Unpublished manuscript, University of Waterloo, Ontario, Canada.

Sines, J., Pauker, J., Sines, L. & Owen, D. R., 1969). Identification of clinically relevant dimensions of children´s behavior. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 33*, 728-734. doi:10.1037/h0028450

Sloper, P. & Turner, S. (1993). Risk and resistance factors in the adaptation of parents of children with severe physical disability. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 34,* 167-188.

Smilkstein G. (1978). The Family APGAR: a proposal for a family function test and its use by physicians. *The Journal of Family Practice, 6,* 1231–1239.

Smith, J. (2008). *The experience and needs of parents whose children died due to degenerative disabilities: a qualitative analysis.* Tesis doctoral, University of Maryland.

Smith, J. & Osborn, M. (2003). *Interpretative phenomenological analysis.* En Smith, J. A. Ed. Qualitative psychology: a practical guide to methods. London: Sage.

Sniehotta, F., Schwarzer, R., Scholz, U. & Schüz, B. (2005). Action planning and coping planning for long-term lifestyle change: theory and assessment. *European Journal of Social Psychology, 35*, 565-576.

Snowdon, A., Cameron, S. & Dunham, K. (1994). Relationships between stress, coping resources and satifaction with family functioning in families of children with disabilities. *Canadian Journal of Nursing Research, 26*, 63-76.

Snyder, C., Harris, C., Anderson, J., Holleran, S., Irving, L., Sigmon, S. et al., (1991). The will and the ways: development and validation of an individual-differences measure hope. *Journal of Personality and Social Psychology, 60*, 570-585.

Spilka, B., Hood, R & Gorsuch, R. (1985). *The Psychology of Religion: an empirical approach*. Englewood Cliffs: Prentice-Hall.

Stauffer, M. H. (1998). Along psychotherapy group for children with chronic medical illness. *Bulletin of the Menninger Clinic, 62*, 1, 15- 32. doi:10.1097/00000446-199809000-00027

Stewart, J., Mishel, M., Lynn, M. & Terhorst, L. (2010). Test of a conceptual model of uncertainty in children and adolescents with cancer. *Research in Nursing & Health, 33*, 179-191.

Stiles W. (1995). Disclosure as a speech act: is it psychotherapeutic to disclose? In Pennebacker, J. W. *Emotion, disclosure and health*. American Psychological Association Ed.

Stofle, G. (2001). *Choosing an online therapist.* White Hat Communications Ed.

Stone, A., Kennedy-Moore, E., Newman, M., Greenberg, M. & Neale, J. (1992). Conceptual and methodological issues in current coping assessments. In Carpenter, B. (Ed.) *Personal coping. Theory, research and application.* London: Praeger Publishers.

Stoneman, Z. & Gaviria-Payne S. (2006). Marital adjustment in families of youg children with disabilities: associations with daily hassles and problem-focused coping. *American Journal of Mental Retardation, 111*, 1-14. doi:10.1352/0895-8017(2006)111[1:MAIFOY]2.0.CO;2

Solden, J., Guildea, A., Antao, V., Street, E. & Silbert, J. (1999). Behavioural and emotional problems in boys with Duchenne`s muscular dystrophy: parental confidence and perception. *Ambulatory Child Health, 8*, 331- 338.

Solow, R. (1965). Psychological aspects of muscular dystrophy. *Exceptional Children*, 10, 99-104.

Soutter, J., Hamilton, N., Russell, P., Bushby, K., Sloper, P. & Bartlett, K. (2004). The Golden Freeway: a preliminary evaluation of a pilot study advancing information technology as a social intervention for boys with Duchenne muscular dystrophy and their families. *Health and Social Care in the Community*, *12*, 25-33. doi:10.1111/j.1365-2524.2004.00465.

Spek, V., Nyklicek, I, Smits, N., Cuijpers, P., Riper, H., Keyzer, J. & Pop, V. (2007). Internet based cognitiva behavioural therapy for subthreshold depression in people over 50 years old: a randomised controlled clinical trial. *Psychological Medicine, 37*, 1797- 1806. doi:10.1017/S0033291707000542

Spielberger, C. (1966). *Anxiety and behavior*. Nueva York: Academic Press.

Spielberger, C., Gorsuch, R. & Lushene, R. (1982). *Cuestionario de Ansiedad Estado Rasgo*. Tea Ed. Madrid.

Strauss, A. & Corbin, J. (1998). *Basics of qualitative research: techniques and procedures for developing grounded theory.* Sage.

Stroebe, M & Schut, H. (1999). Dual process model of coping with bereavement. *Death Studies, 23,* 197-224. doi:10.1080/074811899201046

Schwarzer, R. & Knoll, N. (2007). Functional roles of social support within the stress and coping process: a theoretical and empirical overview. *International Journal of Psychology, 42,* 243-252. doi:10.1080/00207590701396641

Stewart, M. (1995). Effective physician-patient communication and health outcomes: a review. *Canada Medical Association Journal, 152,* 1423-1433.

Sullivan, M., Mikail. S. & Weinshenker, B. (1997). Coping with a diagnosis of multiple sclerosis. *Canadian Journal of Behavioural Science, 29,* 249-257.

Suls. J. & Fletcher, B. (1985). The relative efficacy of avoidant and nonavoidant coping strategies: a meta-analysis. *Health Psychology, 4,* 249-288.

Tamres, L., Janicki, D. & Helgeson, V. (2002). Se differences in coping behaviour: a meta-analytic review and an examination of relative coping. *Personality and Social Psychology Review, 6,* 2-30. doi:10.1207/S15327957PSPR0601_1

Tangney, J., Baumeister, B. & Boone, A. (2004). High self-control predicts good adjustment, less pathology, better grades and interpersonal success. *Journal of Personality, 72,* 2, 271-322.

Taylor, J. (1953). A personality scale of manifest anxiety. *Journal of Abnormal and Social Psychology, 48*, 285-290.

Tedeschi, R. G. & Calhoun, L. G. (1995*). Trauma and transformation: growing in the aftermath of suffering.* Thousand Oaks: C.A.: Sage.

Tedeschi, R. G., & Calhoun, L. G. (2004). Posttraumatic Growth: Conceptual Foundations and Empirical Evidence. *Psychological Inquiry, 15(1),* 1-18.

Telford, K., Kralik, D. & Koch, T. (2006). Acceptance and denial: implications for people adapting to chronic illness: literature review. *Journal of Advanced Nursing, 55*, 457-464.

Tennen, H., Affleck, G. & Gershman, K. (1986). Self-blame among parents of infants with perinatal complications: the role of self-protective motives. *Journal of Personality and Social Psychology, 50*, 690-696.

Tennen, H. & Affleck, G. (2002). Benefit finding and benefit reminding. En Snyder, C. & López, S. (Eds.), *The handbook of positive Psychology* (pp.584-597). New York: Oford University Press.

Tennen, H., McKee, T. & Affleck, G. (2000). *Social comparison processes in health and illness*. En Suls, J. & Wheeler, L. (Eds.), *Handbook of social comparison: theory and research* (pp. 443-483). New York: Kluwer Academic.

Tennen, H. & Stroebe, M. (1990). Blaming others for threatening events. *Psychological Bulletin, 108*, 209-232.

Thieme, A., Mitulla, B., Schulze, F. & Spiegler, A. (1994). Chronic childhood spinal muscular atrophy in Germany (West-Thüringen) an epidemiological study. *Human Genetics, 93*, 344-346. doi:10.1007/BF00212036

Thompson, S. (2009). *Parental perceptions of family adjustment in childhood disability: the role of parenting stress, parental self-esteem and positive appraisal*. Doctoral Dissertation: University of Manitoba.

Thompson, R., Zeman, J., Fanurik, D. & Sirotkin-Roses, M. (1992). The role of parental stress and coping and family functioning in parents and child adjustment to

Duchenne Muscular Dystrophy. *Journal of Clinical Psychology, 48, 1*, 11-19. doi:10.1002/1097-4679

Timko, C. & Janoof-Bulman, R. (1985). Attributions, vulnerability and psychological adjustment: the case of breast cancer. *Health Psychology, 4*, 521-544.

Tollén, A. & Ahlström, G. Assessment Instrument for Problem- focused Coping. (1998). *Scandinavian Caring Sciences, 12*, 18- 24. doi:10.1080/02839319850163093

Torsney, K. (2003). Advantages and disadvantages of rehabilitation for persons with neurological disabilities. *Neurorehabilitation*, *18,* 183-185.

Trew, J. (2011). Eploring the roles of approach and avoidance in depression: an integrative model. *Clinical Psychology Review, 3*, 1156-1168.

Triplett, K. N., Tedeschi, R. G., Cann, A., Calhoun, L. G., & Reeve, C. L. (2011). Posttraumatic growth, meaning in life, and life satisfaction in response to trauma. *Psychological Trauma: Theory, Research, Practice, And Policy*, doi:10.1037/a0024204

Trouillet, R., Gana, K., Lourel, M. & Fort, I., (2009). Predictive value of age for coping: the role of self-efficacy, social support satisfaction and perceived stress. *Aging & Mental Health, 13,* 357-366.

Trute, B. (1995). Gender differences in the psychological adjustment of parents of young, developmentally disabled children. *Journal of Child Psychology and Psychiatry, 36*, 1225-1242.

Trute, B. (1990). Child and parent predictors of family adjustment in households containing young developmentally disabled children. *Family Relations, 39*, 292-297.

Trute, B., Benzies, K. & Worthington, C. (2012). Mother positivity and family adjustment in households with children with a serious disability. *Journal of Child and Family Studies, 21*, 411-417.

Trute, B., Worthington, C. & Hiebert-Murphy, D. (2008). Grandmother support for parents of children with disabilities: gender differences in parenting stress. *Families, Systems & Health, 26*, 135-146.

Underwood, M., Firmin, R. & Jehr, D. (1993). Aspects of psychological and social morbidity in patients awaiting coronary bypass grafting. *British Heart Journal, 69*, 382-384.

Underwood, P. (2012). Social support. The promise and the reality. En Hill-Rice, V. (Ed.), *Stress, Coping and Health. Implications for nursing research, theory and practice*. Thousand Oaks, Sage.

Vaillant, G. (1994). Ego mechanism of defense and personality psychopathology. *Journal of Abnormal Psychology, 103*, 44-50.

Van der Zee, K., Buunk, B., Sanderman, R., Botke, G. & VandenBerg, F. (2000). Social comparison and coping with cancer treatment. *Personality and Individual Differences, 28*, 17-34.

Vandereycken, M. (2005). Denial of illness: a concept in search refinement. *Advances in Psychology Research, 37*, 63-95.

Van Manen, M. (1990). *Researching lived experience: Human science for an action sensitive pedagogy*. London: The State University of New York.

Varni, J., Burwinkle, T., Seid, M. & Skarr, D. (2003). The PedsQL 4.0 as a pediatric population health measure: feasibility, reliability and validity. *Ambulatory Pediatrics, 3*, 329-341.

Venters, T. & Wallander, J. (2001). Hope and social support as resilience factors against psychological distress of mothers who care for children with chronic physical conditions. *Rehabilitation Psychology, 46*, 382-399.

Verdugo, M. A. & Jordán de Urríes, F. B. (eds.). (2006). *Rompiendo inercias. Claves para avanzar*. (VI Jornadas Científicas sobre personas con Discapacidad). Amarú Ediciones.

Viney, L. (1986). Expression of positive emotion by people who are physically ill: is it evidence of defending or coping? *Journal of Psychosomatic Research, 30*, 27-34.

Vishnevsky, T., Cann, A., Calhoun, L. G., Tedeschi, R. G., & Demakis, G. J. (2010). Gender differences in self-reported posttraumatic growth: A meta-analysis. *Psychology Of Women Quarterly*, *34*, 110-120. doi:10.1111/j.1471-6402.2009.01546.

Vitaliano, P., Russo, J., Carr, J., Maiuro, R. & Becker, J. (1985). The Ways of Coping Checklist: revision and psychometric properties. *Multivatiate Behavioral Research, 20*, 3-26.

Vosgerau, J. (2010). How prevalent is wishful thinking? Misattribution of arousal causes optimism and pessimism in subjective probabilities. *Journal of Experimental Psychology, 139*, 32-48.

Voth, J. & Sirois, F. (2009). The role of self-blame and responsibility in adjustment to inflammatory bowel disease. *Rehabilitation Psychology, 54*, 99-108.

Wade, S. L., Taylor, H. G., Drotar, D., Stancin, T., Yeates, K. O., & Minich, N. M. (2002). A prospective study of long-term caregiver and family adaptation following brain injury in children. *Journal of Head Trauma Rehabilitation, 17*, 96–111. doi:10.1097/00001199-200204000-00003

Walter, F., Emery, J., Braithwaite, D. & Marteau, T. (2004). Lay Understanding of Familial risk of common chronic diseases: a systematic review and synthesis of qualitative research. *Annals of Family Medicine, 2*, 583–594. doi: 10.1370/afm.242

Watson, M. M., Haviland, J. S., Greer, S. S., Davidson, J. J., & Bliss, J. M. (1999). Influence of psychological response on survival in breast cancer: a population-based cohort study. *Lancet, 354*, 1331-1336.

Watson, M., Greer, S, Rowden, L, Gorman, C., Robertson, B., Bliss, J. & Turnmore, R. (1991). Relationships between emotional control, adjustment to cancer and depression and anxiety in breast cancer patients. *Psychological Medicine, 21*, 51-57.

Watson, M., Law, M., Dos Santos, M., Greer, S., Baruch, J. & Bliss, J. (1994). The mini-MAC: further development of the Mental Adjustment to Cancer Scale. *Journal Psychosocial Oncology, 12*, 33-46.

Watzlawick, P., Weakland, J. & Fish, R. (1974). *Change: principles of problem formation and problem resolution*. New York: Norton.

Webb, C. (2005). Parent`s perspectives on coping with Duchenne muscular dystrophy. *Child: Care, Health & Development, 31*, 4, 385- 396. doi:10.1111/j.1365-2214.2005.00518.

Weiner, B. (1986). *An attributional theory of motivation and emotion*. New York: Springer-Verlag.

Weiss, T. (2002). Posttraumatic growth in women with breast cancer and their husbands: an intersubjective validation study. *Journal of Psychosocial Oncology, 20*, 65-80.

Weisman, A. (1972). *On dying and denying.* New York: Behavioral Publications.

Werner, J. (1993). *Stressors and health outcomes: synthesis of nursing research*. En Barnfather, J. & Lyon, D. (Eds.), Stress and coping: state of the science and

implications for nursing theory, research and practice. Indianapolis: Sigma Theta Tau International.

Wethington, E. & Kessler, R. (1986). Perceived support, received support and adjustment to stressful life events. *Journal of Health and Social Behavior, 27,* 78-89.

Wheeler, S. & Lord, L. (1999). Denial: a conceptual analysis. *Archives of Psychiatric Nursing, 13,* 311-320.

White, M., Chaney, J., Mullins, L., Wagner, J., Hommel, K., Andrews, N. & Jarvis, J. (2005). Children´s perceived illness uncertainty as a moderator in the parent-child distress relation in juvenile rheumatic disease. *Rehabilitation Psychology, 50,* 224-231.

Wijngaards de Meij, L., Stroebe, M., Schut, H., Stroebe, W., Jan van den Bout, P., Heiden, P. & Dijkstra, I. (2008). Parents grieving the loss of their child: interdependence in coping. *British Journal of Clinical Psychology, 47,* 31-42. doi:10.1348/014466507216152

Wilkinson, A., Barrera, S., McBride, C., Snyder, D., Sloane, R., Meneses, K., Pekmezi, D., Kraus, W. & Demark-Wahnefried, W. (2012). Extant health behaviors and uptake of standardized vs tailored health messages among cancer survivors enrolled in the FRESH START trial: a comparison of fighting-spirits vs fatalists. *Psycho-Oncology, 21,* 108-113.

Williams, P. (2005). *What is social support? A grounded theory of social interaction in the context of the new family.* University of Adelaide.

Williams, A. (2012). *Family structure, development, and stress as frameworks for understanding late-life planning in aging families of individuals with*

intellectual/developmental disabilities. Ph.D. dissertation, University of Colorado at Colorado Springs, United States, Colorado.

Wills, T. (1997). *Modes and families of coping: an analysis of social comparison in the structure of other cognitiva and behavioural mechanism*. En Buunk, B. & Gibbons, F. Eds.), Health, coping & well-being: perspectives form social comparison theory. Mahwah, NJ: Mawrence Erlbaum Associates.

Wood, J. (1996). What is social comparison and how should we study it? *Personality and Social Psychology Bulletin, 22*, 520-537.

Wortman, C. & Cohen, R. (1989). The myths of coping with loss. *Journal of Consulting and Clinical Psychology, 57*, 349-357.

Wright, B. (1983). *Physical disability: a psychosocial approach*. New York: HaperCollins.

Yeh, C. (2002). Gender differences of parental distress in children with cancer. *Journal of Advanced Nursing, 38*, 598-606. doi:10.1046/j.1365-2648.2000.02227.x

Yin, R. (1994). *Case Study Research: Design and Methods.* Sage Publications, Thousand Oaks, CA.

Young, B., Dixon-Woods, M., Windridge, K. & Heney, D. (2003). Managing communication with young people who have a potentially life threatening chronic illness: qualitative study of patienst and parents. *BMJ, 326*, 305-310.

Zakowski, S., Harris, C., Krueger, N., Laubmeier, K., Garrett, S., Flanigan, R. & Johnson, P. (2003). Social barriers to emotional expression and their relation to distress in male and female cancer patients. *British Journal of Health Psychology, 8*, 271-286. doi:10.1348/135910703322370851

Zalewska, A., Miniszewska, J., Chodkiewicz, J. & Narbutt, J. (2007). Acceptance of chronic illness in psoriasis vulgaris patients. Journal of European Academic *Dermatology Venereology, 21,* 235-242. doi:10.1111/j.1468-3083.2006.01912.x

Zeitlin, S., Williamson, G. & Rosenblatt, W. (1987). The coping with stress model: a counseling approach for families with a handicapped child. *Journal of Counseling and Development, 65,* 443- 436. doi:10.1002/j.1556-6676.1987.tb00752.x

Ziolko, M. (1991). Couseling parents of children with disabilities: a review of the literature and implications for practice. *Journal of Rehabilitation*, 29- 34.

Zlomke, K. & Hahn, K. (2010). Cognitive emotion regulation strategies: gender differences and associations to worry. *Personality and Individual Differences, 48,* 408-413. doi:10.1016/j.paid.2009.11.007

ANEXOS

Anexo 1

CONSENTIMIENTO INFORMADO

Le agradecemos su participación voluntaria en este estudio sobre afroanteminto en familiares con niños con Enfermedad Neuromuscular y sus familiares. Su firma en este documento de Consentimiento Informado significa que Ud. ha sido informado sobre las características y condiciones de dicha evaluación.

1. Me han informado que participaré en una entrevista de evaluación psicosocial.
2. Me han informado que mi participación es voluntaria, pudiendo abandonar la evaluación cuando lo desee, por cualquier razón y sin ninguna consecuencia.
3. Me han informado de que las entrevistas serán grabadas para su posterior análisis y que la confidencialidad de los datos está plenamente asegurada. Mis datos serán registrados en el ordenador de forma anónima, sin figurar nombres y apellidos, y los ficheros mostrarán una clave en vez de mi nombre.
4. Me han informado que sólo los investigadores de este programa y los ayudantes de investigación tendrán acceso a mis datos y que su uso estará estrictamente limitados a los propósitos de la investigación.
5. Me han informado que no existe ninguna contribución material o económica por participar en esta Evaluación. Mi colaboración es absolutamente voluntaria y gratuita.
6. Me han informado que podré formular cualquier pregunta sobre el estudio a los investigadores principales, el Dr. Imanol Amayra Caro y el Dr. Juan Francisco López Paz, y a los investigadores colaboradores, la Lda. Esther Lazaro y Ldo. Arkaitz de la Cruz, llamando al teléfono 94 413 90 00 (extensiones 2909 – 2907).

He leído esta información anterior y estoy de acuerdo en participar en la Evaluación que se lleva a cabo por los investigadores colaboradores, la Lda. Esther Lázaro y Ldo. Arkaitz de la Cruz.

Fecha

Firma