

Vérzékenységben szenvedő gyermekek és serdülők életminőségének és mentális jóllétének vizsgálata szülői beszámoló alapján

WICHMANN RÉKA¹ – MIKLÓSI MÓNICA^{1,2*}

¹Eötvös Loránd Tudományegyetem, PPK, Pszichológiai Intézet, Fejlődés- és Klinikai Gyermekpszichológia Tanszék

²Heim Pál Gyermekkórház, Mentálhigiéniai Központ

(Beérkezett: 2015. május 31.; elfogadva: 2015. október 25.)

Elméleti háttér: Számos kutatás foglalkozik a ritka betegségekben szenvedők életminőségével, mentális jóllétével. Nemzetközi vizsgálatok szerint a vérzékenységgel járó megbetegedések, feltehetően a korszerű kezelés következtében, nem érintik súlyosan a gyermekek és serdülők mentális jóllétét, életminőségét, bár egyes vizsgálatok problémákra utalnak az érzelmi/hangulati élet, az aktivitás és a figyelem, valamint a szociális és családi működés terén. Magyar nyelvű publikációt azonban nem találtunk a témában. *Cél:* Vizsgálatunk célja vérzékenységben szenvedő gyermekek és serdülők életminőségének és mentális egészségének összehasonlítása volt egészséges kontrollal, illetve figyelemhiányos/hiperaktivitás zavarban (ADHD) szenvedő gyermekek csoportjával. *Módszerek:* Keresztmetszeti kutatásunkban, 25-25 vérzékenységben, illetve ADHD-ban szenvedő és 25 egészséges gyermek gondozója számolt be gyermeke életminőségéről és pszichopatológiai tüneteiről az *Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen (ILK)* kérdőív és a *Képességek és Nehézségek Kérdőív (SDQ)* kitöltésével. *Eredmények:* A szülői beszámoló szerint a vérzékeny gyermekek életminősége nem tért el az egészséges gyermekekétől. Az ADHD-ban szenvedő gyermekek életminősége azonban egyetlen terület (családi kapcsolatok) kivételével minden területen alacsonyabb volt, mint a vérzékeny csoportba tartozó gyermekeké. A vérzékeny csoport a szülői beszámoló szerint szignifikánsan *kevesebb* pszichopatológiai tünetet mutatott az SDQ összesített Probléma skálán, valamint a kortárskapcsolati, illetve érzelmi problémák alskálán, mint a másik két vizsgálati csoport. Az ADHD-s csoport a proszociális magatartás alskála kivételével minden problématerületen szignifikánsan magasabb pontszámot ért el, mint a vérzékeny csoport. *Következtetések:* A vérzékeny gyermekek életminősége és mentális jólléte a szülői beszámoló szerint nem rosszabb, mint az egészséges gyermekeké. A vérzékenységgel járó megbetegedések hatása az életminőségre és mentális jóllétre lényegesen kisebb, mint az ADHD esetében tapasztalható.

Kulcsszavak: vérzékenység, haemophilia, ADHD, életminőség, pszichopatológia, gyermek, serdülő

* Levelező szerző: Miklósi Mónika, ELTE PPK, Pszichológiai Intézet, Fejlődés- és Klinikai Gyermekpszichológia Tanszék, 1064 Budapest, Izabella utca 46. E-mail: miklosi.monika@ppk.elte.hu

1. Bevezetés

A ritka betegségek az átlagpopuláción belüli alacsony előfordulási gyakoriságból ($\leq 5/10\ 000$) adódóan sokszor elhanyagolt területét képezik a kutatásnak, a szakpolitikának és a képzésnek, ami megnehezíti e betegségekben szenvedők életminőségének javítását, és súlyos terhet ró az egészségre (Az Európai Közösségek Bizottsága, 2008).

A vérzékenységgel járó betegségek nagy része ritka betegség. Vérzékenységről beszélünk, ha spontán vagy enyhe trauma hatására jelentős, vagy ismétlődő vérzés lép fel (Rényi & Magyarosy, 2006). Diagnosztikájukról, kezelésükről több, magyar nyelvű, színvonalas munka is olvasható (Rényi & Magyarosy, 2006; NEFMI, 2011).

A vérzékenységgel járó leggyakoribb megbetegedések a haemophilia A és B, illetve a von Willebrand-betegség. A haemophilia az X kromoszómához kötött recesszív módon öröklődő vérzékenység (Rényi & Magyarosy, 2006). Klinikai tünetei a bőrt, vázizomzatot és az ízületeket érintő vérzések. A nem kezelt haemophilia szövődménye lehet az ízületi bevérzések által okozott mozgáskorlátozottság, de felléphetnek életet veszélyeztető, intracraniális vérzések is (Rényi & Magyarosy, 2006). Magyarországon 2011-ben 1030 beteget tartottak számon (NEFMI, 2011). A haemophiliához hasonló, heterogén genetikai hátterű és heterogén klinikai képet mutató vérzékenység a von Willebrand-betegség (Rényi & Magyarosy, 2006). Általános klinikai tünetei a nyálkahártya és bőrvérzések, metrorraghia, jelentkezhettek a haemophiliához hasonló vérzések ízületi vérömlenyek kivételével (Rényi & Magyarosy, 2006). A betegség prevalenciája $1/10\ 000$ körülire tehető (NEFMI, 2011).

A hemophiliás gyermekek elsődleges kezelésének célja a hiányzó véralvadási fehérje pótlása a vérzések teljes megelőzésére (prophylaxis), illetve a prophylaxis mellett esetlegesen létrejövő vérzések kezelésére. A modern kezelési módszerekkel a szövődmények megelőzhetők, és a haemophiliás betegek életkilátásai megközelítik a nem haemophiliás populációét (NEFMI, 2011).

A fizikai betegségek kimenetelének, a kezelések hatékonyságának vizsgálatában egyre nagyobb jelentőségre tett szert az életminőség fogalma, amely magában foglalja a szomatikus, fizikai állapotot és működőképességet, a mentális jóllétet és a szociális működést (Berkes & Mogyorósy, 2008). A szakirodalom szerint a krónikus betegségben szenvedő gyermekek és serdülők a funkcionálás alacsonyabb szintjét mutatják, valamint fokozott rizikóval rendelkeznek a pszichiátriai problémák tekintetében (Cadman, Boyle, Szatmari, & Offord, 1987). Fontos tehát e rizikócsoportok vizsgálata és probléma esetén a megfelelő kezelés felajánlása.

Az életminőség jellemző módon szubjektív fogalom, így vizsgálata elsősorban önbeszámolón alapul (Kiss és mtsai, 2007). Gyermekek esetében azonban nagyon fontos az életminőségről szóló szülői beszámoló, mert a vizsgálatok jellegzetes diszkrepanciát mutatnak az informátorok között. Nem-klinikai mintán a szülő (Jozefiak, Larsson, Wichstrøm, Mattejat, & Ravens-Sieberer, 2008), klinikai mintán a gyermek számol be jobb életminőségről (Flapper & Schoemaker, 2008; Jafari, Ghanizadeh, Akhondzadeh, & Mohammadi, 2010; Thaulow & Jozefiak, 2012; Limbers, Ripperger-Suhler, Heffer, & Varni, 2011). A gyermekek betegségelátása korlátozott, gyakran alulbecsülik a megbetegedéssel járó nehézségeiket. Korábbi vizsgálatok arra utalnak, hogy betegcsoportokban a szülői értékelés sok tekintetben realisabb és nagyobb prediktív értékkel bír a gyermekéletminőség-vizsgálatokban (Velő, Keresztény, Szentiványi, & Balázs, 2013).

Számos kutatás foglalkozik a nemzetközi szakirodalomban a vérzékenységekben (elsősorban haemophiliában) szenvedő gyermekek és serdülők életminőségével, önképével, mentális jóllétével, különös tekintettel a szociális és iskolai működés, valamint a fizikai aktivitás kérdésével.

Gringeri és munkatársai (2004) multicentrikus vizsgálatában az egészséggel kapcsolatos életminőséget összességében elfogadhatónak találták vérzékenységekben szenvedő gyermekek körében. Clemente és munkatársai (2002) szintén multicentrikus vizsgálata strukturált diagnosztikus interjúval vizsgálta a mentális zavarok előfordulását. A haemophiliás csoport nem különbözött az egészségesektől sem a mentális zavarok előfordulásának gyakoriságában, sem a funkcionálás szintjében.

Az externalizáló tünetek előfordulását vizsgálva Wodrich, Recht, Gradowski és Wagner (2003) azt találták, hogy a haemophiliás fiúk 29%-a esetében volt felállítható a figyelemhiányos/hiperaktivitás zavar (ADHD) diagnózisa, amely magasabb az átlagpopulációban becsült gyakoriságnál. Spencer, Wodrich, Schultz, Wagner és Recht (2009) vizsgálatában a 6–14 éves, haemophiliában szenvedő fiúk mind a szülői, mind a tanári értékelés alapján magasabb pontszámot értek el a hiperaktivitás/impulzivitás tüneteit mérő skálán, míg a figyelemzavaros tünetek csak a tanári értékelés szerint bizonyultak szignifikánsan gyakoribbnak ebben a csoportban. Más vizsgálatokban a haemophiliás csoport nem különbözött az egészségesektől az externalizáló problémák mértékében (Evans, Cottrell, & Shiach, 2000; Trzepacz, Vannatta, Davies, Stehben, & Noll, 2003).

Az internalizáló tünetek előfordulását is több vizsgálat érintette. A Beck Depresszió Kérdőív alapján a haemophiliás gyermekek és serdülők 36%-ánál enyhe, 22%-ánál közepes, 10%-ánál súlyos depressziót igazoltak; és a depresszió szintje szignifikáns, negatív irányú összefüggést mutatott a mozgásszervi szövődmények súlyosságával (Hassan, Badr, Fattah, & Ba-

dawy, 2011). Továbbá, haemophiliás gyermekek és serdülők több érzelmi tünetről (Trzepacz és mtsai, 2003) és alacsonyabb önértékelésről számoltak be (Trzepacz és mtsai, 2003; Hegeman és mtsai, 2011), bár más vizsgálatok nem igazolták az internalizáló tünetek emelkedett szintjét (Evans és mtsai, 2000; Logan, Gibson, Hann, & Parry-Jones, 1993).

Két vizsgálat utal a haemophiliás fiúk fokozott rizikójára a tanulási problémák tekintetében. Spencer és munkatársai (2009) vizsgálatában az olvasási és számolási problémák nagyobb arányban fordultak elő a haemophiliás csoportban. Wodrich és munkatársai (2003) a tanulási zavarok gyakoriságát 38%-ra becsülték haemophiliában szenvedő fiúk körében.

A haemophiliának a szociális funkciókra tett hatását vizsgálta kilenc iskoláskorú fiúban Williams és Chapman (2011) mélyinterjú technikával. A kvalitatív elemzés szerint három fontos téma merült fel: a másság tudata, valamint a különbségek elrejtésére és a kortárskapcsolatok építésére tett erőfeszítés. A szerzők következtetése szerint a haemophilia szociálisan stigmatizáló betegség a fiúk számára, mivel számos „fiús” tevékenységben korlátozza őket. Ezzel ellentétben Trzepacz és munkatársai (2003) kérdőíves vizsgálatában a haemophiliás fiúk nem különböztek a szociális funkciók terén az életkorban illesztett, egészséges kontrolltól.

A profilaktikus kezelés elterjedéséig a fizikai aktivitást kerülendőnek tartották haemophiliában (Logan és mtsai, 1993), ami az edzetségen, fittségen kívül a szociális kapcsolatokra és az önértékelésre is kedvezőtlen hatással lehetett. A profilaktikus kezelés bevezetésével azonban a sportolás a haemophiliás gyermekek számára is lehetséges, sőt javasolt időtöltés lett. A gyermekek speciális szükségéit figyelembe vevő közösségi sportprogramok, táborok növelik a fizikai, érzelmi és szociális jóllét mértékét (von Mackensen, 2007; Negrier és mtsai, 2013), illetve segítenek megelőzni a mozgásszervi szövődeményeket (Gomis, Querol, Gallach, Gonzalez, & Aznar, 2009). Khair, Littlely, Will, & von Mackensen (2012) multicentrikus vizsgálatukban azt találták, hogy azok a fiúk, akik kevesebb, mint napi 2 órát töltenek a televízió, illetve számítógép előtt, kevesebbet hiányoznak az iskolából, továbbá a rendszeresen sportoló fiúk jobb életminőségről számolnak be. Ennek ellenére, Schoenmakers, Gulmans, Helders és Van Den Berg (2001) szerint a haemophiliás fiúk 56%-a szembesül valamilyen restrikciónal a sporttevékenységet illetően. Broderick, Herbert, Latimer és van Doorn (2013) pedig arról számol be, hogy a haemophiliás gyermekek és serdülők nagyobb hányada (57%) nem mozog annyit, mint amennyit az egészségügyi irányelvek meghatároznak az adott életkori csoport számára, amiben szerepet játszhat, hogy a profilaktikus kezelés elterjedése ellenére a szülők még mindig elsősorban veszélyforrásként tekintenek a fizikai aktivitásra.

A funkcióról és az életkor összefüggéseit vizsgálva azt találjuk, hogy míg a kisebb gyermekek a családi működéssel és a kezeléssel kapcsolatban (Gringeri és mtsai, 2004), addig a serdülők a szociális működés, a barátságok és az észlelt támogatás terén észlelnek nehézségeket (Gringeri és mtsai, 2004; Hegeman és mtsai, 2011).

A haemophilia súlyossága a vizsgálatok eredményei szerint nem mutat összefüggést a mentális jólléttel (Logan és mtsai, 1993; Clemente és mtsai, 2002). Sőt, Bullinger és von Mackensen (2008) hangsúlyozza, hogy az életminőséget befolyásoló faktorok között kiemelt szerepe van a pszichoszociális faktoroknak, mint például a szociális támogatásnak.

Összességében tehát a nemzetközi vizsgálatok szerint a haemophilia – feltehetően a korszerű kezelés következtében – nem érinti súlyosan a gyermekek és a serdülők mentális jóllétét, életminőségét, bár egyes vizsgálatok problémákra utalnak az érzelmi/hangulati élet, az aktivitás és a figyelem, valamint a szociális és családi működés terén. A publikációk egy részében nem követhető, hogy on demand (csak vérzés esetén) vagy profilaktikus kezelésben levőket vizsgáltak, ami részben magarázhatja az eredmények diszkrépanciáit. Magyar nyelvű publikációt nem találtunk a témában. Vizsgálatunk célja ezért a vérzékenységben szenvedő gyermekek életminőségének és mentális egészségének összehasonlítása volt egészséges kontrollal, illetve ADHD-ban szenvedő gyermekek csoportjával.

A figyelemhiányos/hiperaktivitás zavar (ADHD) az egyik leggyakoribb gyermekpszichiátriai kórkép, a gyermekek 3–12%-át érinti (Pszichiátriai Szakmai Kollégium, 2008). A diagnózis felállításához szükséges a DSM-5 (APA, 2013) által felsorolt 9–9 figyelemzavaros, illetve hiperaktív/impulzív tünetből legalább 6 (17 éves kor felett legalább 5) fennállása a megelőző 6 hónapban, legalább két élethelyzetben, problémát jelentő módon, korai kezdettel. Az ADHD jelentős funkciórólhoz vezet a mindennapi működés számos területén, illetve számos érzelmi és viselkedésbeli komorbid tünettel jár együtt (Danckaerts és mtsai, 2010; Velő és mtsai, 2013; Keresztény és mtsai, 2012). Az ADHD-s gyermekeket szomatikus betegségekkel összehasonlítva azt találták, hogy daganatos megbetegedésben, illetve 1-es típusú diabéteszben szenvedő gyermekek a testi egészség terén rosszabb életminőséggel jellemezhetők, mint az ADHD-s csoport, de az életminőség minden más területén az ADHD-ban szenvedő gyermekek mutattak rosszabb életminőséget (Limbers és mtsai, 2011). Az ADHD-s gyerekek az állapotuk hátterében álló kognitív deficit miatt jellegzetesen alulbecsülik problémáikat (Hozza és mtsai, 2004), ezért itt a szülői beszámoló különösen nagy jelentőséggel bír (Velő és mtsai, 2013).

A vérzékenység és az ADHD összehasonlítását az is indokolja, hogy mindkettő olyan krónikus betegség, amely az esetek nagy részében (kora)

gyermekkorban kerül diagnosztizálásra és nagyobb arányban érinti a fiúkat, mint a lányokat. Továbbá, az aktivitás mindkét betegségben fontos tényező, az ADHD-ban az egyik legfontosabb tünet a túlzott aktivitás, a vérzékenységekben pedig, a profilaktikus kezelés elterjedése ellenére, a fizikai aktivitásra még mindig veszélyforrásként tekintenek a hozzátartozók. A két betegség összevetését indokolja az a néhány tanulmány is, amelyek vérzékeny fiúkban a figyelemzavar, illetve a hiperaktivitás/impulzivitás magasabb szintjét találták (Wodrich és mtsai, 2003; Spencer és mtsai, 2009).

2. Módszer

2.1. Vizsgálati személyek és eljárás

Vizsgálatunkat a Heim Pál Gyermekkórház és Rendelőintézet Intézeti Kutatás-Értékelési Bizottsága engedélyével kezdtük meg (*Ritka betegségek pszichoszociális aspektusainak vizsgálata 11/2013*). Keresztmetszeti, kérdőíves kutatásunkban 25-25 vérzékenységekben, illetve ADHD-ban szenvedő és 25 egészséges gyermek gondozóját kértük meg egy kérdőívcsomag kitöltésére. A vérzékeny csoportba azon gyermekek szüleit vontuk be, akiket a Heim Pál Gyermekkórház Haemophilia Ambulanciáján haemophilia A, B, illetve von Willebrand-betegséggel gondoznak. A vizsgálatból kizártuk a diagnosztikus fázisban lévő gyermekek szüleit. Az ambulancián megjelenő szülőket a tájékoztatás és beleegyezés után egy kérdőívcsomag kitöltésére kértük fel. A kérdőívcsomagot a szülő a váróban, vagy e-mail-cím megadása után, online töltötte ki. Három szülő nem egyezett bele a vizsgálatba, két szülő beleegyezés után az online kérdőívcsomagot nem küldte vissza. A diagnózisok gyakoriságát és a vérzékenység előfordulását a családban az 1. táblázat mutatja.

1. táblázat. A vérzékeny csoport (n = 25) jellemzői

Változó		n (%)
Diagnózis	haemophilia A	17 (68)
	haemophilia B	2 (8)
	von Willebrand-betegség	6 (24)
Családi halmozódás	igen	11 (44)

A másik két csoportot egy nagyobb, a második szerző vezetésével zajló, nem publikált vizsgálat adatbázisából illesztettük, rétegzett randomizációt (Szokolszky, 2004) alkalmazva. Ennek során a nagyobb mintát az illesztés szempontjai szerint homogén részcsoportokra osztottuk és mindegyikből a

megfelelő számú elemet választottuk ki random módon. Az ADHD-s mintát a Heim Pál Gyermekkorház Mentálhigiéniai Központjában ADHD-val diagnosztizált és kezelés alatt álló gyermekek szüleinek köréből gyűjtöttük. A kontrollcsoport egy kényelmi, nem-klinikai mintából származott, amelyet a hólabda módszerrel (Szokolszky, 2004) értünk el. A mintába 18 év alatti gyermeket nevelő szülőket vontunk be. Kizártuk azokat, akik esetében a szülő a gyermekben fennálló pszichológiai/pszichiátriai diagnózisról, kezelésről vagy krónikus betegségről számolt be.

A vérzékeny csoporthoz a nem-klinikai kontrollt páronként illesztettük a gyermek nemére, életkorára, illetve a gondozó személyére (édesanya/édesapa). Az ADHD-s csoportnál erre nem volt lehetőségünk, de a rétegzett randomizáció eredményeképp a gondozó személye és a nemek aránya itt is megegyezett. A három csoport életkori átlaga nem különbözött ($F(2) = 0,045$; $p = 0,956$), de a gondozó életkorában szignifikánsan különbséget találtunk ($F(2) = 3,918$; $p = 0,024$). Az ADHD-s gyermeket nevelő szülők idősebbek voltak, mint a vérzékenységekben szenvedő gyermeket nevelő szü-

2. táblázat. A vizsgálati csoportok demográfiai jellemzői

Változó		Kontroll (n = 25)	Vérzékeny (n = 25)	ADHD (n = 25)
Gyermek életkora (év), átlag (szórás)		9,54 (4,81)	9,54 (4,81)	9,84 (2,78)
Gyermek neme, n (%)	fiú	20 (80)	20 (80)	20 (80)
	lány	5 (20)	5 (20)	5 (20)
Gondozó, n (%)	édesanya	21 (84)	21 (84)	21 (84)
	édesapa	4 (16)	4 (16)	4 (16)
Gondozó életkora (év), átlag (szórás)		38,12 (5,12)	37,4 (5,31)	41,36 (5,55)
Gondozó iskolai végzettsége,* n (%)	alapfokú	0 (0)	2 (8)	2 (8)
	középfokú	11 (44)	13 (52)	13 (52)
	felsőfokú	14 (56)	9 (36)	9 (36)
Lakóhely, n (%)	főváros	11 (44)	10 (40)	20 (80)
	megyeszékhely	5 (20)	2 (8)	0 (0)
	város	3 (12)	7 (28)	3 (12)
	kisebb település	6 (24)	6 (24)	2 (8)
Család, n (%)	eredeti, teljes	21 (84)	19 (76)	16 (64)
	egyéb	4 (16)	6 (24)	9 (36)
Testvérek, n (%)	nincs	5 (20)	9 (36)	5 (20)
	egy	13 (52)	11 (44)	12 (48)
	több	7 (28)	5 (20)	8 (32)

Megjegyzés: n = 75. *Egy-egy adat hiányzott a vérzékeny, illetve az ADHD-s csoportban. ADHD: figyelemhiányos/hiperaktivitás zavar.

lők ($p = 0,028$), a kontrollcsoport nem különbözött egyik klinikai csoporttól sem ebben a változóban. A gondozó iskolai végzettsége tekintetében megjegyzendő, hogy a kontrollcsoportban nem volt olyan szülő, akinek csupán alacsony végzettsége volt. A három mintát mégis közel kiegyenlítettnek mondhatjuk, khi-négyzet-próbával vizsgálva a legfeljebb középfokú, illetve a felsőfokú végzettségűek arányát, a három csoport nem mutatott szignifikáns különbséget ($\chi^2(2) = 2,285$; $p = 0,319$). A lakóhely tekintetében azonban különbségeket találtunk a három csoport között, a fővárosban, illetve egyéb településen lakók aránya szignifikánsan különbözött a három csoportban ($\chi^2(2) = 9,792$; $p = 0,007$). Az ADHD-s csoportban nagyobb arányban voltak fővárosi gyerekek, mint a másik két vizsgálati csoportban. A családok jellemzői alapján is összehasonlítottuk a három csoportot: a vizsgálati csoportok nem különböztek sem a testvérszám ($\chi^2(6) = 5,380$; $p = 0,496$), sem a családszerkezet (eredeti, teljes család/egyéb) tekintetében ($\chi^2(2) = 2,001$; $p = 0,368$). A három vizsgálati csoport demográfiai jellemzőit a 2. táblázatban mutatjuk be részletesen.

2.2. Mérészközök

A kérdőívcsomagban található demográfiai adatlapban rákérdeztünk a gyermek nemére, életkorára, oktatási intézményének típusára, krónikus/pszichiátriai betegségére, a szülők iskolai végzettségére, lakóhelyére, a családban előforduló pszichiátriai betegségekre, a családszerkezetre.

A 6–18 éves gyermekek életminőségének vizsgálatára az Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen (ILK; Mattejat és mtsai, 1998; Kiss és mtsai, 2007) kérdőív szülői változatát használtuk, melynek 7 tétele az életminőség egy-egy területére kérdez rá (intézmény, család, szabadidő eltöltése, önállóság, testi egészség, mentális jólét, globális értékelés), az elmúlt hétre vonatkozóan. A kérdéseket ötfokú Likert-skálán (végpontok: 1 = nagyon jól, 5 = nagyon rosszul) válaszolta meg a szülő. Az egyes ILK-tételek mediánjainak összehasonlítása mellett az értékelés alternatív módja az adott területtel elégedetlenek (≥ 3 pont) arányának megadása (Mattejat és mtsai, 1998), mi ez utóbbi metódust alkalmaztuk. Az életminőség a hét tétel összpontszámával is jellemezhető, melynek értéke 7-től 35-ig terjedhet. A magasabb pontszám *rosszabb* életminőséget jelez. A kérdőív úgynevezett általános életminőség kérdőív, amely egészséges és beteg populáció felmérésére is alkalmazható, utóbbiban két kiegészítő kérdés található, amely a betegség és a kezelés életminőséget befolyásoló hatását vizsgálja. Az eredeti skála pszichometriai mutatóiról Mattejat és munkatársai (1998) számolnak be. A magyar változat belső meg-

bízhatósága, stabilitása és diszkriminatív validitása megfelelő volt (Kiss és mtsai, 2007). A jelen vizsgálatban az ILK teljes skála belső konzisztenciája jónak bizonyult (Cronbach- α = 0,84). Mivel az ILK kérdőívet 6–18 éves gyermekekre validálták, a 6 év alatti gyermekekre vonatkozó adataink nem kerültek be az elemzésekbe. Az ILK kérdőív adatait feldolgozó elemzések során a mintaelemszám 62.

A mentális jóllét vizsgálatára a Képességek és Nehézségek Kérdőív (Strengths and Difficulties Questionnaire; SDQ; Goodman, 2001; Birkás, Lakatos, Tóth, & Gervai, 2008) szülői változatát használtuk, amely a gyermekkorai érzelmi, viselkedéses és szociális működés felmérésére alkalmas, rövid, mindössze 25 tételt tartalmazó, átfogó mérőeszköz. A szülő egy háromfokú Likert-skálán értékeli, hogy az adott állítás mennyiben jellemzi a gyermekét (válaszlehetőségek: 0 = nem, 1 = kissé, 2 = teljesen). A kérdőívet több mint 60 nyelvre lefordították, jelenleg a leggyakrabban alkalmazott többdimenziós tünetbecslő skála. Négy, egyenként 5 tételes probléma alskálát (érzelmi tünetek, viselkedéses tünetek, figyelemzavar/hiperaktivitás tünetek, kortárskapcsolati problémák), az ezek összesítéséből képzett Probléma skálát (az összpontszám terjedelme: 0–40), valamint a proszociális viselkedés mérésére alkalmas, szintén 5 tételes alskálát tartalmaz. A magyar változat pszichometriai mutatói elfogadhatónak bizonyultak (Birkás és mtsai, 2008). Mintánkon az SDQ alskálái ugyancsak elfogadható belső konzisztenciát mutattak (Cronbach- α = 0,65–0,90).

2.3. Statisztikai módszerek

A statisztikai elemzést az IBM SPSS 21 programcsomaggal végeztük. A normális eloszlású változók, az SDQ Probléma skála és figyelemzavar/hiperaktivitás alskála esetében paraméteres, a többi változó esetében nem-paraméteres próbákat használtunk. Az alapstatisztika megadása után a demográfiai tényezők hatását vizsgáltuk az életminőségre és a mentális egészségre. Az alacsony elemszám miatt eltekintettünk az apák/anyák, illetve a fiúk/lányok összehasonlításától. Vizsgáltuk az életkor összefüggéseit az ILK- és SDQ-skálákkal. A gondozó iskolai végzettsége alapján két csoportot képeztünk, az alap-, illetve középfokú végzettségű szülők válaszait hasonlítottuk össze a felsőfokú végzettségű szülők válaszaival. Hasonlóan, a lakóhely szerint a fővárosban, illetve egyéb településen élőket vizsgáltuk. Ezután összehasonlítottuk a három vizsgálati csoportot az életminőség és a mentális egészség tekintetében. Összevetettük az életminőségük különböző aspektusaival elégedetlenek előfordulási gyakoriságát a három csoportban, ehhez khi-négyzet-próbát, illetve Fisher egzakt tesztet használtunk. A foly-

tonos változók esetében a csoportok középértékeinek összehasonlítására normális eloszlás esetében egyszempontos varianciaanalízist (ANOVA), a normális eloszlás sérülése esetében Kruskal–Wallis-féle H-próbát alkalmaztunk. A változók közötti lineáris kapcsolatokat Spearman-féle rangkorrelációs elemzéssel teszteltük.

3. Eredmények

3.1. A vizsgálatban alkalmazott skálák alapstatisztikája

A 3. táblázatban bemutatjuk a skálák alapstatisztikáját és belső megbízhatóságának mutatóit.

3. táblázat. A vizsgálatban szereplő skálák leíró adatai és reliabilitásmutatói

	Cronbach- α	Átlag	Szórás
ILK Összpontszám	0,84	12,20	4,43
SDQ Probléma skála	0,90	16,55	9,52
SDQ Magatartászavar	0,65	3,22	2,27
SDQ Kortárskapcsolati problémák	0,78	3,60	3,24
SDQ Érzelmi problémák	0,83	3,82	2,94
SDQ Figyelemzavar/Hiperaktivitás	0,76	5,92	3,13
SDQ Proszociális magatartás	0,82	8,33	2,73

Megjegyzés: ILK: Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen. SDQ: Képességek és Nehézségek Kérdőív.

3.2. A demográfiai tényezők hatása

Az alap-, illetve középfokú végzettségű szülők szignifikánsan alacsonyabbnak ítélték gyermekük életminőségét, mint a felsőfokú végzettségű szülők ($Z = -2,243$; $p = 0,025$). Az SDQ-alskálák pontszámait nem befolyásolta szignifikánsan a szülők iskolai végzettsége. A fővárosban lakó szülők szignifikánsan alacsonyabbnak ítélték gyermekük életminőségét az iskola ($Z = -2,773$; $p = 0,006$), az önállóság ($Z = -2,112$; $p = 0,035$), a mentális egészség ($Z = -2,792$; $p = 0,005$) tekintetében, valamint az életminőséget összesében ($Z = -2,482$; $p = 0,013$). Az ILK Összpontszám is magasabb volt a fővárosi csoportban, ami rosszabb életminőségre utal a szülői beszámoló szerint ($Z = -2,712$; $p = 0,007$). A fővárosi szülők emellett több viselkedési problémát jeleztek ($Z = -2,353$; $p = 0,019$), mint az egyéb településen élők. A gyermek életkora szignifikáns negatív kapcsolatban állt a viselke-

déses problémákkal ($r_s = -0,33$; $p = 0,004$), a figyelemzavar/hiperaktivitás tüneteinek erősségével ($r_s = -0,28$; $p = 0,017$), valamint az SDQ összesített Probléma skála pontszámával ($r_s = -0,27$; $p = 0,020$).

3.3. Az életminőség összehasonlítása a három csoportban

A három csoport szignifikáns különbséget mutatott az elégedetlenek arányában az életminőség minden vizsgált területén. A *post hoc* elemzés eredményei szerint a vérzékeny és a kontrollcsoport között nem volt különbség, de az ADHD-s csoportban a testi egészség kivételével minden területen szignifikánsan több szülő volt elégedetlen gyermeke életminőségével, mint a kontrollcsoportban. Hasonlóan, az ADHD-s csoportban egyetlen terület – a családi kapcsolatok – kivételével szignifikánsan több szülő számolt be közepes, illetve rossz/nagyon rossz életminőségéről, mint a vérzékeny csoportban. Az eredményeket a 4. táblázatban részletezzük.

4. táblázat. Az elégedetlenek aránya az életminőség egyes aspektusai tekintetében és a csoportok összehasonlítása

Az életminőség egyes aspektusai (ILK)	Az elégedetlenek aránya, n (%)				$\chi^2(2)$	p
	Teljes minta (n = 62)	Kontroll ^a (n = 19)	Vérzékeny ^b (n = 19)	ADHD ^c (n = 24)		
1. Iskola	23 (37,1)	3 (15,8) ^c	2 (10,5) ^c	18 (75,0) ^{ab}	24,22	< 0,001
2. Család	8 (12,9)	0 (0) ^c	1 (5,3)	7 (29,2) ^a	NA	0,006
3. Szabadidő	13 (21,0)	1 (5,3) ^c	1 (5,3) ^c	11 (45,8) ^{ab}	NA	< 0,001
4. Önállóság	14 (22,6)	1 (5,3) ^c	1 (5,3) ^c	12 (50,0) ^{ab}	NA	< 0,001
5. Testi egészség	17 (27,4)	3 (15,8)	2 (10,8) ^c	12 (50,0) ^b	10,16	0,006
6. Mentális egészség	25 (40,3)	1 (5,3) ^c	3 (15,8) ^c	21 (87,5) ^{ab}	36,66	< 0,001
7. Globális becslés	17 (27,4)	1 (5,3) ^c	1 (5,3) ^c	15 (62,5) ^{ab}	24,21	< 0,001

Megjegyzés: ILK: Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen. ADHD: figyelemhiányos/hiperaktivitás zavar. NA: a khi-négyzet-próba nem alkalmazható, a p-értékek itt a Fisher egzakt próbából származnak. A felső indexek a csoportok közötti páronkénti összehasonlítás során kapott szignifikáns különbségeket jelzik, Bonferro-ni-korrekción után ($\alpha' = \alpha/3 = 0,017$).

A három csoport szignifikáns eltérést mutatott az ILK Összpontszám tekintetében is (5. táblázat). A középértékek páronkénti összehasonlításának eredménye szerint a vérzékeny és a kontrollcsoport nem különbözött, az ADHD-ban szenvedő gyermekek viszont szignifikánsan magasabb pontszámot értek el, mint a vérzékeny, illetve a kontrollcsoport.

3.4. Érzelmi és viselkedési tünetek összehasonlítása a három csoportban

A három csoport az érzelmi és viselkedési tüneteket vizsgáló SDQ kérdőív minden alskáláján szignifikáns különbséget mutatott. A középértékek páronkénti összehasonlításával végzett utóelemzések eredményei szerint a vérzékeny és a kontrollcsoport szignifikánsan különbözött az SDQ Probléma skálán, valamint a kortárskapcsolati és az érzelmi problémák alskálákon. A vérzékeny csoport szignifikánsan *kevesebb* tünetet mutatott ezeken a problématerületeken. Az ADHD-s csoportban a szülők, az SDQ proszociális magatartás alskálájának kivételével, minden problématerületen több tünetről számoltak be, mint a vérzékeny csoportban. Továbbá, az ADHD-s csoport szignifikánsan magasabb pontszámot ért el az SDQ magatartászavar és figyelemzavar/hiperaktivitás alskáláján, illetve szignifikánsan alacsonyabb pontszámot mutatott az SDQ proszociális magatartás alskáláján, mint a kontrollcsoport. Az eredményeket az 5. táblázatban mutatjuk be részletesen.

5. táblázat. A három csoport összehasonlítása a vizsgált változók mentén

Változók	Átlag (szórás)			F(2)/ χ^2 (2)	p
	Kontroll ^a	Vérezékeny ^b	ADHD ^c		
ILK Összpontszám (N = 62)	9,79 (2,04) ^c	9,84 (2,97) ^c	15,98 (4,20) ^{ab}	χ^2 (2) = 28,51	< 0,001
SDQ Probléma skála	16,92 (10,68) ^b	10,48 (6,53) ^{ac}	22,20 (7,20) ^b	F(2) = 18,03	< 0,001
SDQ Magatartászavar alskála	2,92 (2,31) ^c	2,24 (2,15) ^c	4,44 (1,87) ^{ab}	χ^2 (2) = 12,47	0,002
SDQ Kortárskapcsolati problémák alskála	4,68 (3,95) ^b	1,80 (2,06) ^{ac}	4,28 (2,75) ^b	χ^2 (2) = 12,51	0,002
SDQ Érzelmi problémák alskála	4,28 (2,74) ^b	1,81 (1,95) ^{ac}	5,36 (2,90) ^b	χ^2 (2) = 24,01	< 0,001
SDQ Figyelemzavar/ Hiperaktivitás alskála	5,04 (3,40) ^c	4,63 (2,57) ^c	8,12 (2,17) ^{ab}	F(2) = 15,56	< 0,001
SDQ Proszociális magatartás alskála	9,52 (3,14) ^c	7,90 (2,20)	7,56 (2,45) ^a	χ^2 (2) = 6,05	0,049

Megjegyzés: n = 75. ILK: Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen. SDQ: Képességek és Nehézségek Kérdőív. ADHD: figyelemzavaros/hiperaktivitás zavar. A felső indexek a csoportok közötti páronkénti összehasonlítás során kapott szignifikáns különbségeket jelzik.

4. Megbeszélés

Vizsgálatunk célja vérzékenységekben szenvedő gyermekek életminőségének és mentális egészségének felmérése volt. A vérzékenységekben szenvedő gyermekek életminőségét és mentális egészségét nemcsak egészséges kontrollal hasonlítottuk össze, hanem kihasználva az általános életminőség kérdőív és az átfogó pszichopatológiai vizsgálóeszköz adta lehetőségeket, egy másik krónikus betegcsoporttal is, ADHD-ban szenvedő gyermekek csoportjával. Az ADHD-t azért választottuk, mert számos nemzetközi és hazai vizsgálat alapján igazoltan funkcióromláshoz vezet az élet számos területén, számos érzelmi és viselkedésbeli komorbid tünettől jár együtt (Danckaerts és mtsai, 2010; Velő és mtsai, 2013). A vérzékenység és az ADHD, bár teljesen különböző kórformák, a kora gyermekkori kezdet, a nemek aránya, valamint a fizikai aktivitás jelentősége mindkét kórképben indokolja az összevetést.

Korábbi vizsgálatok eredményeihez (pl. Jozefiak és mtsai, 2008) hasonlóan, az életminőség becslése nem volt független a demográfiai tényezőktől. A magas iskolai végzettségű szülők jobb életminőségről számoltak be. Ennek hátterében állhatnak a jobb szocioökonómiai státusszal összefüggő lehetőségek, erőforrások. Különbséget találtunk az életminőség és a mentális működés becslésében a fővárosi és egyéb lakóhely szerint. Mivel az ADHD-s csoportban nagyobb arányban voltak fővárosi gyerekek, mint a másik két vizsgálati csoportban, lehet, hogy ezek az eredmények ezt az egyenlenséget tükrözik.

Eredményeink szerint a vérzékeny gyermekek életminősége nem különbözik az egészséges gyermekek életminőségétől a vizsgált dimenziókban. Eredményeink azokkal a korábbi vizsgálatokkal vannak összhangban, amelyek hangsúlyozzák, hogy a vérzékenységekben szenvedő gyermekek életminősége összességében nem rosszabb, mint az egészségeseké (Clemente és mtsai, 2002; Gringeri és mtsai, 2004). Vizsgálatunk nem erősítette meg azon eredményeket, amelyek funkcióromlásról számolnak be a szociális működés terén (Hegeman és mtsai, 2011; Williams & Chapman, 2011). Összességében, eredményeink arra utalnak, hogy a vérzékenységekben szenvedő gyermekek teljes életet élhetnek, kevésbé érzik a betegség okozta terheket.

A vérzékeny és az ADHD-ban szenvedő csoport összehasonlításában azt az eredményt kaptuk, hogy az ADHD-s gyermekek életminősége a családi élet kivételével minden területen alacsonyabb a szülői értékelés szerint, még a testi egészség dimenziójában is. Az eredmény meglepő, mert míg a vérzékenységeknek számos szomatikus vonzata van (Rényi & Magyarosy, 2006), az ADHD esetében ilyenről nem nagyon tudunk. Bár ezen a terüle-

ten további vizsgálatokra van szükség, ez az eredmény mindenképpen az ADHD-ban szenvedő gyermekek és szüleik súlyos problémáira utal.

Korábbi vizsgálatokkal összhangban (lásd Danckaerts és mtsai, 2010; Velő és mtsai, 2013 összefoglalóit), az ADHD-ban szenvedő gyermekek életminőségét a szülők – a testi egészség kivételével – minden területen rosszabbnak értékelték, mint a kontrollcsoportban.

A három vizsgálati csoport összehasonlítása az érzelmi, viselkedéses és szociális problémák terén meglepő eredményeket is hozott. A vérzékeny csoport és a kontrollcsoport szignifikánsan különbözött az SDQ összesített Probléma skálán, valamint a kortárskapcsolati, illetve érzelmi problémák alszállán, mégpedig a vérzékeny csoport szignifikánsan *kevesebb* tünetet mutatott ezeken a probléma területeken. A figyelemzavar/hiperaktivitás alszállán, valamint a viselkedéses problémák alszállán nem találtunk szignifikáns különbséget a vérzékeny és az egészséges gyermekek között. Ez az eredmény ellentmond azoknak a vizsgálatoknak, amelyek a vérzékeny gyermekekben több érzelmi problémát, illetve a hiperaktivitás több tünetét találták (Hassan és mtsai, 2011; Trzepacz és mtsai, 2003; Wodrich és mtsai, 2003; Spencer és mtsai, 2009). Eredményeink magyarázatára egyfelől feltételezhetjük, hogy a vérzékeny gyermekek esetében a szülők a szomatikus betegségekre fókuszálják a figyelmüket, ezért alulbecsülik a pszichológiai tüneteket. Másrészt az is lehetséges, hogy a vérzékeny gyerekek, szomatikus betegségük miatt, több szülői figyelmet kapnak, és ez pozitív hatással van mentális jóllétükre. E feltételezések további vizsgálatok tárgyát képezhetik.

Az ADHD-ban szenvedő csoport az SDQ proszociális magatartás alszállá kivételével minden problématerületen szignifikánsan magasabb pontszámot ért el, mint a vérzékeny csoport, valamint szignifikánsan több externalizáló tünetet mutatott a szülői beszámoló szerint, mint a kontrollcsoportba tartozó gyermekek.

Eredményeink alapján összességében megállapíthatjuk, hogy a vérzékenységekben szenvedő gyermekek pszichopatológiai szempontból feltűnésmentesek, mentális jóllétük kielégítő.

Vizsgálatunk eredményeit annak erősségeivel/korlátaival együtt érdemes értelmezni. Vizsgálatunk erőssége, hogy a vérzékeny mintát és a kontrollcsoportot gondosan illesztettük a legfontosabb demográfiai mutatók mentén. Az ADHD-s csoport illesztésére nem volt lehetőségünk, de a nemek aránya a három csoportban megegyezett, és az életkori átlagban sem mutatott szignifikáns eltérést a három csoport.

Az általános életminőség skála használata lehetővé tette, hogy vizsgálati csoportunkat egészséges kontrollal, valamint más krónikus betegcsoport adataival hasonlítsuk össze, azonban nem tartalmazott betegség-

re specifikus kérdéseket. A vérzékenység súlyosságának indikátoraként szolgáló, a faktorszámra vonatkozó kérdésre a szülők legnagyobb hányada nem válaszolt (feltehetően nem tudott), így erre a tényezőre nem korrigáltuk az elemzést. A szakirodalomban ismételtlen megerősített adat, hogy a vérzékenység súlyossága nem befolyásolja a gyermekek/szülők életminőségét, mentális jóllétét (Logan és mtsai, 1993; Clemente és mtsai, 2002). Így feltételezhetjük, hogy vizsgálatunknak e hiányossága az eredmények értelmezhetőségét nem befolyásolja. A mentális jóllétet egy általános, többdimenziós, rövid skálával vizsgáltuk, ami értelemszerűen limitálta a vizsgálatba bevont problématerületek számát. Nem vizsgáltuk például a tanulással kapcsolatos problémákat, melyek mind az ADHD-ban, mind a vérzékenységekben szenvedő gyermekek esetében releváns terület. Továbbá, az alacsony elemszám felelős lehet egyes nem-szignifikáns eredményekért. A kis elemszám miatt egyes demográfiai változók hatását sem tudtuk vizsgálni. Figyelembe kell venni azonban, hogy egy ritka betegséget vizsgáltunk, és a 25 fő a nagyságrendileg 1000 magyar esethez viszonyítva nem kevés. Az egy centrumban zajló nemzetközi vizsgálatok is hasonló mintanagysággal dolgoztak (Evans és mtsai, 2000; Wodrich és mtsai, 2003; Spencer és mtsai, 2009; Hassan és mtsai, 2011; Williams & Chapman, 2011; Trzepacz és mtsai, 2003), nagyobb minta gyűjtéséhez multicentrikus vizsgálatra lenne szükség. A visszautasítás/kiesés mértéke elenyésző volt a vérzékeny mintában, az ADHD-s gyermeket nevelő szülők esetében a kiesés nagyobb arányú volt, amit okozhatott a szülői pszichopatológia is. Ez torzíthatta a mintát az enyhébb esetek irányába. Vizsgálatunkban csak egyetlen információforrást használtunk. A gyermek és a szülő megítélése a szakirodalom szerint eltérő lehet az életminőség tekintetében (Berkes & Mogyorósy, 2008), ezért érdemes lett volna a gyermekeket is megkérdezni. Korábbi vizsgálatok arra utalnak, hogy nem-klinikai mintán a szülő, betegcsoportokban a gyermek számol be kevesebb nehézségről (Jozefiak és mtsai, 2008; Thaulow & Jozefiak, 2012), így feltételezzük, hogy a gyermekek megkérdezése esetén a vérzékeny és a kontrollcsoport közötti eltérés még kisebb lett volna. A kérdőíves módszerrel szerzett információ befolyásolhatta a szociális kívánatosság, a szülő pszichopatológiai tünetei, a belátás mértéke és egyéb kognitív képességek. További korlát, hogy csak a Heim Pál Gyermekkorház betegeit vontuk be a vizsgálatba, ami korlátozza eredményeink általánosíthatóságát.

Mindezen limitációk ellenére vizsgálatunk fontos hiányt pótol. A ritka betegségek pszichoszociális aspektusainak vizsgálatát az alacsony előfordulásból következően kevés kutatás célozza. Tudomásunk szerint ez az első hazai vizsgálat, amely a vérzékenységekben szenvedő gyermekek életminőségével és mentális jóllétével foglalkozik.

A nemzetközi kutatásokkal (pl. Gringeri és mtsai, 2004) összhangban lévő eredmények alapján elmondhatjuk, hogy a vérzékeny gyermekek életminősége és mentális jólléte nem rosszabb, mint az egészséges gyermekeké. Ebben feltehetően a korszerű gondozási centrumoknak, a modern kezelési módszereknek kulcsszerepe van. Eredményeink azonban, számos külföldi és hazai vizsgálattal egybehangzóan felhívják a figyelmet az ADHD-ban szenvedő gyermekek problémáira, és megerősítik, hogy az ADHD a gyermekek életminőségét súlyosan rontó krónikus megbetegedés, amely esetében a komplex, hosszú távú kezelés elengedhetetlen.

Irodalom

- APA (American Psychiatric Association) (2013). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders* (5th ed.). Arlington, VA: American Psychiatric Publishing
- Berkes, A., & Mogyorósy, G. (2008). Az életminőség-mérés alapjai és annak gyermekkori alkalmazása. *Orvosi Hetilap*, 149(37), 1761–1768.
- Birkás, E., Lakatos, K., Tóth, I., & Gervai, J. (2008). Gyermekkori viselkedési problémák felismerésének lehetőségei rövid kérdőívekkel I: A Strengths and Difficulties Questionnaire magyar változata. *Psychiatria Hungarica*, 23(5), 358–365.
- Broderick, C.R., Herbert, R.D., Latimer, J., & van Doorn, N. (2013). Patterns of physical activity in children with haemophilia. *Haemophilia*, 19(1), 59–64.
- Bullinger, M., & von Mackensen, S. (2008). Psycho-social determinants of quality of life in children and adolescents with haemophilia—a cross-cultural approach. *Clinical Psychology and Psychotherapy*, 15(3), 164–172.
- Cadman, D., Boyle, M., Szatmari, P., & Offord, D. R. (1987). Chronic illness, disability, and mental and social well-being: findings of the Ontario Child Health Study. *Pediatrics*, 79(5), 805–813.
- Clemente, C., Tsiantis, J., Sadowski, H., Lee, C., Baharaki, S., Ba, G., & Taylor, B. (2002). Psychopathology in children from families with blood disorders: a cross-national study. *European Child & Adolescent Psychiatry*, 11(4), 151–161.
- Danckaerts, M., Sonuga-Barke, E.J.S., Banaschewski, T., Buitelaar, J., Döpfner, M., Hollis, et al. (2010). The quality of life of children with attention deficit/hyperactivity disorder: a systematic review. *European Child and Adolescent Psychiatry*, 19(2), 83–105.
- Az Európai Közösségek Bizottsága (2008). *Ritka betegségek: kihívás Európa számára*. Közlemény. Letöltve: http://ec.europa.eu/health/ph_threats/non_com/docs/rare_com_hu.pdf
- Evans, M., Cottrell, D., & Shiach, C. (2000). Emotional and behavioural problems and family functioning in children with haemophilia: a cross-sectional survey. *Haemophilia*, 6(6), 682–687.
- Flapper, B.C.T., & Schoemaker, M.M. (2008). Effects of methylphenidate on quality of life in children with both developmental coordination disorder and ADHD. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 50(4), 294–299.
- Gomis, M., Querol, F., Gallach, J.E., Gonzalez, L.M., & Aznar, J.A. (2009). Exercise and sport in the treatment of haemophilic patients: a systematic review. *Haemophilia*, 15(1), 43–54.
- Goodman, R. (2001). Psychometric properties of the Strengths and Difficulties Questionnaire. *Journal of the American Academy of Child & Adolescent Psychiatry*, 40(11), 1337–1345.

- Gringeri, A., von Mackensen, S., Auerswald, G., Bullinger, M., Garrido, R.P., Kellermann, et al. (2004). Health status and health-related quality of life of children with haemophilia from six West European countries. *Haemophilia*, 10(Suppl. 1), 26–33.
- Hassan, T.H., Badr, M.A., Fattah, N.R.A., & Badawy, S.M. (2011). Assessment of musculoskeletal function and mood in haemophilia A adolescents: a cross-sectional study. *Haemophilia*, 17(4), 683–688.
- Hegeman, A.K., Van Genderen, F.R., Meijer, S., Van Den Briel, M.M., Tamminga, R.Y.J., & Van Weert, E. (2011). Perceived competence in children and adolescents with haemophilia: an explorative study. *Haemophilia*, 17(1), 81–89.
- Hoza, B., Gerdes, A.C., Hinshaw, S.P., Arnold, L.E., Pelham Jr., W.E., Molina, B.S.G., et al. (2004). Self-perceptions of competence in children with ADHD and comparison children. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 72(3), 382–391.
- Jafari, P., Ghanizadeh, A., Akhondzadeh, S., & Mohammadi, M.R. (2010). Health-related quality of life of Iranian children with attention deficit/hyperactivity disorder. *Quality of Life Research*, 20(1), 31–36.
- Jozefiak, T., Larsson, B., Wichstrøm, L., Mattejat, F., & Ravens-Sieberer, U. (2008). Quality of life as reported by school children and their parents: A cross-sectional survey. *Health and Quality of Life Outcomes*, 6, 34. doi:10.1186/1477-7525-6-34
- Keresztény, Á., Dallos, Gy., Miklósi, M., Róka, A., Gáboros, J., & Balázs, J. (2012). A gyermek- és serdülőkorú figyelemhiányos-hiperaktivitás zavar komorbiditásainak összehasonlítása. *Psychiatria Hungarica*, 27(3), 165–173.
- Khair, K., Littley, A., Will, A., & von Mackensen, S. (2012). The impact of sport on children with haemophilia. *Haemophilia*, 18(6), 898–905.
- Kiss, E., Baji, I., Mayer, L., Skultéti, D., Benák, I., & Vetró, Á. (2007). Életminőség kérdőív validitása és pszichometriai jellemzői magyar gyermekpopuláción. *Psychiatria Hungarica*, 22(1), 33–42.
- Limbers, C.A., Ripperger-Suhler, J., Heffer, R.W., & Varni, J.W. (2011). Patient-reported Pediatric Quality of Life Inventory™ 4.0 Generic Core Scales in pediatric patients with attention-deficit/hyperactivity disorder and comorbid psychiatric disorders: feasibility, reliability, and validity. *Value in health : The Journal of the International Society for Pharmacoeconomics and Outcomes Research*, 14(4), 521–530.
- Logan, F.A., Gibson, B., Hann, I.M., & Parry-Jones, W.L.I. (1993). Children with haemophilia: same or different? *Child: Care, Health and Development*, 19(4), 261–273.
- Mattejat, F., Jungmann, J., Meusers, M., Moik, C., Nölkel, P., Schaff, C., et al. (1998). Das Inventar zur Erfassung der Lebensqualität bei Kindern und Jugendlichen (ILK) – Eine Pilotstudie. *Zeitschrift für Kinder- und Jugendpsychiatrie und Psychotherapie*, 26(3), 174–182.
- NEFMI (2011). Szakmai irányelv a hematológiai betegségek korszerű kezeléséről - a véralvadási zavarok korszerű kezelése. Letöltve: 2013. 12. 01-jén: https://kollegium.gyem-szi.hu/conf/upload/oldiranyelvek/TRANSZF_veralvadasi_zavarok_korszeru_kezelese_mod0_v0.pdf
- Negrier, C., Seuser, A., Forsyth, A., Lobet, S., Llinas, A., Rosas, M., et al. (2013). The benefits of exercise for patients with haemophilia and recommendations for safe and effective physical activity. *Haemophilia*, 19(4), 487–498.
- Pszichiátriai Szakmai Kollégium (2008). Az Egészségügyi Minisztérium szakmai irányelve a hiperkinetikás zavar (figyelemhiányos/hiperaktivitás zavar) kórismezéséről, kezeléséről és gondozásáról. *Egészségügyi Közlöny*, 58(3), 1342–1362.

- Rényi, I., & Magyarosy, E. (2006). A haemorrhagiás diathesisek. In T. Tulassay, & A. Arató (szerk.), *Gyermekgyógyászati útmutató. Diagnosztikus és terápiás ajánlások gyermekgyógyászati kórképekhez és tünetekhez* (275–285). Budapest: Medition Kiadó
- Schoenmakers, M.A.G.C., Gulmans, V.A.M., Helders, P.J.M., & Van Den Berg, H.M. (2001). Motor performance and disability in Dutch children with haemophilia: a comparison with their healthy peers. *Haemophilia*, 7(3), 293–298.
- Spencer, M.L.S., Wodrich, D.L., Schultz, W., Wagner, L., & Recht, M. (2009). Inattention, hyperactivity-impulsivity, academic skills and psychopathology in boys with and without haemophilia. *Haemophilia*, 15(3), 701–706.
- Szokolszky, Á. (2004). *Kutatómunka a pszichológiában*. Osiris, Budapest
- Thaulow, C.M., & Jozefiak, T. (2012). A comparison between child psychiatric outpatients with AD/HD and anxiety/depression. *Nordic Journal of Psychiatry*, 66(6), 396–402.
- Trzepacz, A.M., Vannatta, K., Davies, W.H., Stehbins, J.A., & Noll, R.B. (2003). Social, emotional, and behavioral functioning of children with hemophilia. *Journal of Developmental and Behavioral Pediatrics*, 24(4), 225–232.
- Velő, S., Keresztény, Á., Szentiványi, D., & Balázs, J. (2013). Figyelemhiányos-hiperaktivitás zavar diagnózisú gyermekek és felnőttek életminősége: az elmúlt öt év vizsgálatának szisztematikus áttekintő tanulmánya. *Neuropsychopharmacologia Hungarica*, 15(2), 73–82.
- von Mackensen, S. (2007). Quality of life and sports activities in patients with haemophilia. *Haemophilia*, 13(S2), 38–43.
- Williams, K.A., & Chapman, M.V. (2011). Social challenges for children with hemophilia: child and parent perspectives. *Social Work in Health Care*, 50(3), 199–214.
- Wodrich, D.L., Recht, M., Gradowski, M., & Wagner, L. (2003). Is attention deficit hyperactivity disorder over-represented among HIV-seronegative boys with haemophilia? Preliminary results from our centre. *Haemophilia*, 9(5), 593–597.

Köszönetnyilvánítás

Köszönetet mondunk Dr. Marosi Anikó és Dr. Rigler Ilona főorvos asszonyoknak, hogy támogatták vizsgálatunkat a Heim Pál Gyermekkorház Haemophilia Ambulanciáján és Mentálhigiéniai Központjában, továbbá Hajda Krisztinának, Kunz Tristánának, Máté Orsolyának, Somogyi Klárának az adatgyűjtésben nyújtott segítségükért.

Szerzői munkamegosztás

A kutatás megtervezése, a hipotézisek megfogalmazása és a vizsgálat lefolytatása a két szerző közös munkája. A statisztikai elemzéseket Miklósi Mónika végezte el. A tanulmányt a két szerző közösen írta.

Nyilatkozat érdeklődéséről

A szerzők kijelentik, hogy esetükben nem állnak fenn érdeklődéseik.

Quality of life and mental health of children suffering bleeding disorders according to parent-report

WICHMANN, RÉKA – MIKLÓSI, MÓNKA

Background: There have been several researches on the impact of rare diseases on quality of life (QoL) and mental health. Previous studies found that bleeding disorders, probably due to prophylactic treatment, do not impact QoL and mental well-being in children and adolescents; some findings suggest impairments in emotional, social and family functioning and increased prevalence of attention deficit and hyperactivity disorder, however. *Aims:* The aim of the study was to assess QoL and psychopathology of children and adolescents suffering in bleeding disorders and compare them with healthy control and patients with attention deficit hyperactivity disorder (ADHD). *Methods:* In a cross sectional design, parents of children and adolescents with bleeding disorders (N = 25), ADHD (N = 25) and healthy control (N = 25) fulfilled the *Inventar zur Erfassung der Lebensqualität von Kindern und Jugendlichen (ILK)* and the *Strength and Difficulties Questionnaire (SDQ)* assessing QoL and psychopathology. *Results:* Parent-rated QoL did not differ between children with bleeding disorders and controls. Parent-rated QoL in the ADHD group was significantly lower in all but one (family life) domains than in the clinical group. Children with bleeding disorders showed significantly *less* psychopathology than controls in SDQ total difficulties score, peer problems, and emotional problems. According to parent-report, children with ADHD had higher scores on all but one SDQ subscale (prosocial behavior) than children with bleeding disorders. *Conclusions:* Children and adolescents with bleeding disorders do not show impairments in QoL and mental health according to parent-report. The impact of bleeding disorders on QoL and mental well-being is much lower than the impact of ADHD.

Keywords: bleeding disorders, haemophilia, ADHD, quality of life, psychopathology, children, adolescent