

UNIVERSIDAD DE SEVILLA

FACULTAD DE MEDICINA
Departamento de Cirugía

**FISURA LABIO-PALATINA.
ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO Y
VALORACIÓN DE CALIDAD DE VIDA**

TESIS DOCTORAL



Manuel Leopoldo Rodado

Sevilla, Septiembre de 2015

Directores de la Tesis:

***Prof. D. Pedro Infante Cossío
Prof. D. Alberto García-Perla García***



Universidad de Sevilla

D. Pedro Infante Cossío, Profesor Titular Vinculado del Departamento de Cirugía de la Universidad de Sevilla y D. Alberto García-Perla García, Doctor por la Universidad de Sevilla, hacen constar que el trabajo de investigación titulado: “Fisura Labio-palatina. Estudio clínico-epidemiológico y valoración de la Calidad de Vida”, presentado por D. Manuel Leopoldo Rodado, ha sido realizado bajo su tutela y dirección y cumple con los requisitos para ser presentado y defendido como Tesis Doctoral, para optar al grado de Doctor de los Estudios de Doctorado.

Lo que firman en Sevilla a 28 Septiembre de 2015.

Fdo:

D. Pedro Infante Cossío

D. Alberto García-Perla García



Agradecimientos

A mis directores de tesis, los Profesores D. Pedro Infante Cossío y D. Alberto García-Perla García por su paciencia y su apoyo. Gracias por su colaboración y su disponibilidad en todo momento. Han sido mi ejemplo e inspiración tanto en el desarrollo de este trabajo como en el ejercicio de la cirugía maxilofacial y cuya profesionalidad y buen hacer me gustaría alcanzar algún día.

A todos los miembros del Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla, en especial al Dr. Rodolfo Belmonte, a todos ellos por su interés y dedicación en mi formación.

A las compañeras de los Centros de Salud de Montequinto y de Santa Olalla del Cala que participaron en la realización de las encuestas a los niños y padres.

A los protagonistas de este proyecto, los niños. Sin lugar a duda este trabajo no podría haberse realizado sin su colaboración.

A mi familia, en especial a mis padres, por inculcarme que la perseverancia y el esfuerzo son el camino para lograr los objetivos.

A mi mujer, Fátima, por alegrar mis días. Por su paciencia, apoyo, comprensión y constante estímulo. Por todas las horas dedicadas a este trabajo robadas a ti y a nuestra hija.

A mi hija, Fátima, que es mi mayor estímulo.



RESUMEN

INTRODUCCIÓN

Los niños nacidos con fisura labio-palatina (FL/P) pueden verse afectados por una combinación de alteraciones y problemas tales como diferencias faciales, trastornos de la deglución, de la audición o del habla y diversas alteraciones de la dentición y crecimiento. El curso del tratamiento es complejo y abarca la niñez, adolescencia y época de adulto con frecuencia. Aunque gran parte del manejo de estos pacientes es quirúrgico, el objetivo principal del tratamiento es lograr el bienestar psicológico y social del individuo y su familia.

Las fisuras orales presentan evidentes alteraciones estéticas y funcionales que pueden tener un impacto profundo en las interacciones sociales y en la Calidad de Vida (CV) de los pacientes y de su familia. Al igual que en otras enfermedades crónicas, las medidas de calidad de vida relacionadas con la salud (CVRS) están demostrando ser útiles para valorar de una forma más integral la enfermedad y su repercusión en la vida diaria del niño fisurado.

El estudio de las diferentes dimensiones de la CV permite determinar el impacto que tanto la patología orofacial como sus diversos tratamientos generan en la vida de los pacientes y de sus familias, con la finalidad última de perfeccionar las técnicas quirúrgicas, los procesos diagnósticos y los controles postoperatorios que se ofrecen. Estas nuevas medidas proporcionan una información complementaria para la toma de decisiones clínicas sobre el estado actual del paciente permitiendo comparar pacientes con diferentes tipos de fisura, valorar el impacto de distintos tratamientos y de las intervenciones sanitarias, identificar las características sociodemográficas de la población de estudio y la forma en que repercute el estado de salud-enfermedad en el ámbito físico, psicológico y social.

A pesar que en los últimos años se han publicado algunos resultados en trabajos a nivel internacional y ser un tema con un importante peso en la actividad clínica diaria, es significativo que no hay artículos publicados en PubMed/MEDLINE por autores españoles que aborden la evaluación de los pacientes fisurados desde una perspectiva multidimensional del estado de salud y con mediciones estandarizadas de CVRS.

OBJETIVOS

Efectuar un estudio epidemiológico descriptivo de los pacientes fisurados tratados durante 10 años, llevando a cabo una auditoría de nuestra Unidad para establecer cuantitativa y cualitativamente el grado de cumplimiento de los principales indicadores de calidad en la atención del paciente fisurado. Por otro lado, medir y analizar la CVRS en niños preescolares con fisuras labiopalatinas, con la idea de conocer la opinión de padres y niños para que, en base a sus percepciones y principales problemas, estudiar cual es el verdadero efecto que provocan la existencia de un miembro familiar con FL/P, y así poder mejorar los protocolos diagnósticos y terapéuticos.

MATERIAL Y MÉTODOS

La investigación de esta tesis constó de dos partes consecutivas: a) Estudio transversal retrospectivo descriptivo clínico-epidemiológico. b) Estudio transversal prospectivo analítico observacional de casos y controles sobre CVRS.

En la primera fase se realizó un estudio descriptivo transversal retrospectivo de pacientes intervenidos por la Unidad Funcional Fisurado (Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial y Servicio de Cirugía Plástica) del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla en el periodo 2000-2009 (“casos incidentes”) de fisura labio-palatina, sometidos a tratamiento siguiendo el protocolo establecido en la Unidad. Inicialmente se realizó una selección de las pacientes que reunían los criterios de inclusión y no presentaban ningún criterio de exclusión. Posteriormente se estableció un protocolo de estudio en que se recogieron de cada paciente datos epidemiológicos, clínico-patológicos y quirúrgicos.

En una segunda fase se llevó a cabo un estudio analítico observacional transversal prospectivo de calidad de vida en pacientes de 4-7 años intervenidos por la Unidad Funcional Fisurado (Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial y Servicio de Cirugía Plástica) del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla. La CVRS se evaluó mediante el empleo de los cuestionarios de salud general KINDL, de salud oral Child-OHIP y la escala de impacto familiar IOFS. Los resultados fueron comparados con los valores referidos por los padres y con la CVRS de una muestra de controles no afectados. Asimismo los resultados se analizaron según el tipo de fisura, la edad y sexo de los niños y la necesidad de reintervención.

RESULTADOS

Durante el periodo de Enero de 2000 a Diciembre de 2009 un total de 460 pacientes fueron sometidos a tratamiento quirúrgico primario por la Unidad de Fisurados del Hospital Virgen del Rocío. El tipo de defecto mayoritariamente tratado fue la fisura labio-palatina con 202 casos (43,9%) seguido de 139 casos de labio leporino (30,2%) y 119 de fisura palatina aislada (25,9%) siendo el subtipo clínico más frecuente la fisura labio-palatina unilateral completa izquierda.

En el periodo de tiempo estudiado de 10 años se llevaron a cabo 707 intervenciones, 327 queiloplastias, 304 estafilorrafias y 76 intervenciones para tratamiento de secuelas o injertos óseos. En el caso de la cirugía labial, la técnica más habitualmente empleada fue la técnica de avance-rotación de Millard (82,3% de las intervenciones), realizada en 269 casos tanto en fisuras unilaterales como bilaterales. La cirugía secundaria labial fue necesaria en 44 de los 327 pacientes (13,4%). Con respecto a la cirugía del paladar, la técnica más habitualmente empleada fue la técnica de Veau-Wardill-Kilner (141 casos) seguidas de la palatoplastia de Von Langenbeck (131 casos). El número de niños que presentaron fistulas oronasales manejadas en forma conservadora fue de 12 mientras que 25 (8,2%) requirieron tratamiento quirúrgico. El número de niños que requirió cirugías secundarias para la corrección de una insuficiencia velofaríngea (IVF) fue de 28 (9,2%). Las técnicas empleadas para la corrección de la insuficiencia velofaríngea fueron la Z-plastia de Furlow con 12 casos y la faringoplastia de SanVenero Roselli con 16 casos.

El estudio de CVRS se realizó en un grupo de estudio constituido por 171 pacientes afectados de fisura orofacial y 186 controles sanos con edades comprendidas entre 4 y 7 años. Los resultados globales observados mediante el cuestionario kiddy-KINDL muestran valores altos en la población de niños con fisuras orofaciales media ($82,11 \pm 14,74$) por lo que el impacto de esta anomalía craneofacial en la CVRS es bajo. Cuando comparamos con el grupo de referencia control, los valores obtenidos tanto en los valores globales como por dimensiones son muy similares. La única diferencia significativa estadísticamente en la percepción sobre CV entre niños sanos y niños fisurados se da en la dimensión de la autoestima donde los niños fisurados perciben su autoestima 5 puntos por debajo en la escala 0-100 respecto a los niños sanos. Cuando comparamos los resultados de los padres con los dados por los niños, los valores obtenidos indican diferencias significativas en las percepciones de los niños y de los

padres en la valoración global y en las dimensiones de autoestima, amigos y enfermedad crónica en estas dimensiones, los padres perciben la CV de su hijo fisurado peor de lo que la percibe el propio niño.

Los resultados globales observados mediante el cuestionario C-OHIP, más específico para problemas orales, mostraron valores globales más altos en la población de niños con fisuras orofaciales por lo que mediante el C-OHIP el impacto de esta anomalía craneofacial en la CVRS es mayor que el observado con un cuestionario genérico como el KINDL.

El impacto familiar de las fisuras orofaciales determinado por el cuestionario IOFS mostró puntuaciones medias generalmente varía entre 3 y 4, indicando así un mínimo impacto tanto global como en todas las dimensiones para la mayoría de las familias de niños con Fisura labial y/o palatina.

CONCLUSIONES

Nuestra serie de 460 pacientes con fisuras orofaciales constituye la muestra más amplia estudiada en España. La Unidad del Fisurado del HUVR cumple con los requisitos de calidad en el tratamiento de los niños con FL/P establecidos por las principales sociedades europeas y mundiales de fisurados (Eurocran y ACPA): número mínimo de 30-50 casos incidentes tratados por año, edades máximas para queiloplastia -6 meses- y palatoplastia -18 meses-.

En niños fisurados de 4 a 7 años, la percepción de la CVRS autopercibida medida con el cuestionario kiddy-KINDL indica que las fisuras orofaciales no reducen de manera estadísticamente significativa ni la CVRS global ni sus diferentes dimensiones (bienestar funcional, psicológico y social) en niños en edad preescolar y escolar temprana. Sin embargo el empleo de cuestionarios más específicos para evaluar la CVRSO revela diferencias estadísticamente significativas en el bienestar funcional y psicosocial relacionadas con problemas funcionales como la pronunciación de palabras y estéticos como la existencia de cicatrices faciales. La existencia de casos individuales con mayor afectación requieren una vigilancia y control más estrechos de estos niños.



GLOSARIO DE
ABREVIATURAS

GLOSARIO DE ABREVIATURAS

ABREVIATURAS			
ACPA	American Cleft Palate Association	GOHAI	General Oral Health Assessment Index
AVD	Actividades Vida Diaria	GWAS	Genomic-Wide Association Study
CHIP	Child Health and Illness Profile	IPDTC	International Perinatal Database of Typical Oral Clefts
CIE	Clasificación Internacional Enfermedades	IOFS	Impact On Family Scale
COHIP	Child Oral Health Impact Profile	IRF	Interferon Regulatory Factor
COH QoL	Child Oral Health Quality of Life	IVF	Insuficiencia Velofaríngea
C-OIDP	Child Oral Impacts on Daily Performances	K-W	Kruskal-Wallis
CPQ	Child Perception Questionnaire	LL	Labio Leporino
CV	Calidad de Vida	M-W	Mann-Withney
CVI	Calidad de Vida Infantil	NHP	Nottingham Health Profile
CVO	Calidad de Vida Oral	OHIP	Oral Health Impact Profile
CVRS	Calidad de Vida Relacionada con la Salud	OIDP	Oral Impacts on Daily Performances
CVRSI	Calidad de Vida Relacionada con la Salud Infantil	OME	Otitis Media Exudativa
CVRSO	Calidad de Vida Relacionada con la Salud Oral	OMIM	Online Mendelian Inheritance in Man
DIDL	Dental Impact on Daily Living	P-CPQ	Parent- Child Perception Questionnaire
DHI	Dental Health Index	PedsQL	Pediatric Quality of Life Inventory
ECOHIS	Early Childhood Oral Health Impact Scale	PRO	Patient Reported Outcome
EUROCRAN	European Collaboration on Craniofacial Anomalies	SIDD	Social Impact of Dental Disease
FL/P	Fisura labial y/o palatina	SVCF	Síndrome VeloCardioFacial
FLP	Fisura labio-palatina	VWS	Síndrome de Van der Woude
FP	Fisura Palatina		



ÍNDICE

ÍNDICE

1. JUSTIFICACIÓN.....	1
2. ANTECEDENTES BIBLIOGRÁFICOS.....	7
2. 1. FISURA LABIO-PALATINA.....	9
2. 1. 1. Incidencia.....	9
2. 1. 2. Etiopatogenia.....	10
2. 1. 3. Embriología de las fisuras orofaciales.....	14
2. 1. 4. Clasificación fisuras orofaciales.....	17
2. 1. 5. Tratamiento.....	20
2. 1. 6. Protocolo manejo paciente fisurado.....	31
2. 2. CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD.....	38
2. 2. 1. Concepto de Calidad de Vida.....	38
2. 2. 2. Salud y Calidad de Vida.....	41
2. 2. 3. Medición de Calidad de Vida Relacionada con la Salud.....	45
2. 2. 4. Calidad de Vida Relacionada con la Salud Infantil.....	48
2. 2. 5. Calidad de Vida y Salud Oral.....	56
2. 2. 6. Calidad de Vida y Salud Oral Infantil.....	61
2. 3. FISURA LABIO-PALATINA Y CALIDAD DE VIDA.....	65
2. 3. 1. Alimentación.....	65
2. 3. 2. Audición.....	66
2. 3. 3. Alteraciones en el crecimiento maxilar.....	68
2. 3. 4. Alteraciones dentales.....	69
2. 3. 5. Alteraciones estéticas.....	70
2. 3. 6. Alteraciones en el habla.....	71
2. 3. 7. Alteraciones psicológicas.....	73
3. OBJETIVOS.....	75
3. 1. OBJETIVOS GENERALES.....	77
3. 2. OBJETIVOS ESPECÍFICOS.....	78
4. MATERIAL Y MÉTODOS.....	81
4. 1. TIPO DE ESTUDIO.....	83
4. 2. DURACIÓN DEL ESTUDIO.....	83
4. 3. DISEÑO DEL ESTUDIO.....	83

4. 4. ÁMBITO DEL ESTUDIO.....	84
4. 4. 1. Población de estudio. Criterios de selección.....	84
4. 4. 2. Tamaño muestral.....	86
4. 5. PROTOCOLO DE RECOGIDA DE DATOS.....	86
4. 5. 1. Estudio clínico-epidemiológico.....	86
4. 5. 2. Estudio de Calidad de Vida.....	87
4. 6. VARIABLES DE ESTUDIO.....	88
4. 6. 1. Variables sociodemográficas.....	88
4. 6. 2. Variables clínicas.....	88
4. 6. 3. Variables quirúrgicas.....	90
4. 6. 4. Variables humanísticas.....	92
4. 7. CUESTIONARIOS.....	93
4. 7. 1. Cuaderno recogida de datos clínicos.....	93
4. 7. 2. Cuestionario de CVRS: Kiddy-KINDL.....	102
4. 7. 3. Cuestionario de CVRSO: C-OHIP 14.....	112
4. 7. 4. Escala de Impacto familiar: IOFS.....	115
4. 8. PLAN DE TRABAJO.....	120
4. 8. 1. Etapa de diseño.....	120
4. 8. 2. Primera fase: estudio clínico-epidemiológico.....	120
4. 8. 3. Segunda fase: estudio de calidad de vida.....	120
4. 9. CONSIDERACIONES ESTADÍSTICAS.....	121
4. 10. ASPECTOS ÉTICOS Y LEGALES DEL ESTUDIO.....	123
5. RESULTADOS.....	129
5. 1. ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO.....	131
5. 1. 1. Datos epidemiológicos.....	131
5. 1. 2. Datos quirúrgicos.....	138
5. 2. ESTUDIO DE CALIDAD DE VIDA.....	145
5. 2. 1. Variables sociodemográficas.....	145
5. 2. 2. Cuestionario respondido por niños (Kiddy-KINDL).....	147
5. 2. 3. Cuestionario respondido por padres (KINDL-p).....	153
5. 2. 4. Comparación percepciones Kiddy-KINDL vs KINDL-p.....	158
5. 2. 5. Cuestionario C-OHIP 14.....	160
5. 2. 6. Cuestionario impacto familiar IOFS.....	165

6. DISCUSIÓN.....	169
6. 1. RESULTADOS DEMOGRÁFICOS.....	169
6. 2. PROTOCOLOS DE TRATAMIENTO.....	173
6. 3. COMPLICACIONES Y SECUELAS DE LA CIRUGÍA	175
6. 4. CALIDAD DE VIDA Y FISURA LABIO-PALATINA.....	177
6. 5. CVRS GENERAL (CUESTIONARIO KINDL).....	178
6. 6. CVRS ORAL (CUESTIONARIO COHIP).....	182
6. 7. VALORACIÓN DE LA CVRS DE NIÑOS VS PADRES.....	185
6. 8. CVRS SEGÚN EL TIPO DE FISURA OROFACIAL.....	186
6. 9. IMPACTO FAMILIAR DE LAS FISURAS OROFACIALES.....	188
6. 10. INFLUENCIA EN LA CVRS DE OTROS FACTORES.....	190
6. 11. FORTALEZAS Y LIMITACIONES.....	191
6. 12. CONSIDERACIONES DE FUTURO.....	192
7. CONCLUSIONES.....	195
8. BIBLIOGRAFÍA.....	199
9. ANEXO.....	215



I

JUSTIFICACIÓN

1. JUSTIFICACIÓN

La fisuras orofaciales (labio, alvéolo y/o paladar) constituyen una de las malformaciones congénitas más frecuentes¹, siendo la segunda causa de malformación congénita al nacimiento en Estados Unidos superada únicamente por el Síndrome de Down² y con un coste terapéutico estimado en 200.000\$ a lo largo de toda la vida³.

Los niños nacidos con fisura labio-palatina (FL/P) pueden verse afectados por una combinación de alteraciones y problemas tales como diferencias faciales, trastornos de la deglución, de la audición o del habla y diversas alteraciones de la dentición y crecimiento. El curso del tratamiento es complejo y abarca la niñez, adolescencia y época de adulto con frecuencia. Aunque gran parte del manejo de estos pacientes es quirúrgico, el objetivo principal del tratamiento es lograr el bienestar psicológico y social del individuo y su familia.

Los cirujanos responsables del tratamiento de los niños con fisuras orofaciales se esfuerzan por lograr excelentes resultados estéticos y funcionales de sus pacientes. Hasta hace pocos años, la información que se obtenía del estado de salud de los niños y adolescentes con FL/P se basaba fundamentalmente en valoraciones objetivas tales como medidas anatómicas, fotografías clínicas, resultados funcionales del esfínter velofaríngeo así como las complicaciones y morbilidades asociadas. Sin embargo, aunque estos factores siguen siendo importantes, ya no son suficientes: los resultados subjetivos registrados por el paciente (que incluyen resultados estéticos, de habla, funcionalidad, imagen, incorporación a la sociedad) ofrecen una evaluación más exhaustiva y válida que los resultados objetivamente quirúrgicos.

La compleja interacción social entre individuos está profundamente influenciada por aspectos como la apariencia física (existencia de diferencias faciales y dentales visibles), la comunicación verbal (habla, audición) o la percepción de uno mismo (alteraciones psicológicas). Las fisuras orales presentan evidentes alteraciones faciales y funcionales que pueden tener un impacto profundo en las interacciones sociales y en la Calidad de Vida (CV) de los pacientes y de su familia.

Al igual que en otras enfermedades crónicas, las medidas de calidad de vida relacionadas con la salud (CVRS) están demostrando ser útiles para valorar de una forma más integral la enfermedad y su repercusión en la vida diaria del niño fisurado. De esta manera,

adquiere importancia el desarrollo de estudios que tengan en cuenta la opinión y percepción del individuo (Resultados Percibidos por los pacientes–*Patient Reported Outcomes-PRO*), es decir, la forma en que el sujeto percibe su estado de salud-enfermedad⁴. La salud autopercibida se asocia de manera independiente a los diagnósticos clínicos y permite predecir la hospitalización y la utilización de los servicios de atención sanitaria, por lo que se considera una variable relevante asociada con el gasto sanitario⁵.

El estudio de las diferentes dimensiones de la CV permite determinar el impacto que tanto la patología orofacial como sus diversos tratamientos generan en la vida de los pacientes y de sus familias, con la finalidad última de perfeccionar las técnicas quirúrgicas, los procesos diagnósticos y los controles postoperatorios que se ofrecen. Estas nuevas medidas proporcionan una información complementaria para la toma de decisiones clínicas sobre el estado actual del paciente permitiendo comparar pacientes con diferentes tipos de fisura, valorar el impacto de distintos tratamientos y de las intervenciones sanitarias, identificar las características sociodemográficas de la población de estudio y la forma en que repercute el estado de salud-enfermedad en el ámbito físico, psicológico y social.

El estudio de la CV del niño fisurado puede tener utilidad a nivel individual para tratar al paciente de forma global, conocer la valoración que éste hace de su enfermedad y la repercusión de ésta en diversos aspectos de su vida. Permite predecir la evolución de los tratamientos a la vez que ayuda a la toma de decisiones terapéuticas. Por lo tanto, los indicadores de calidad de vida pensamos que pueden constituir una herramienta básica para evaluar los resultados del tratamiento conjuntamente con las secuelas y tasas de reintervenciones, y con ello, el coste-utilidad de las diferentes opciones terapéuticas, con una repercusión mensurable y detectable.

La introducción de consideraciones cualitativas de CV en el cuidado de los niños con fisuras añade a los objetivos de la atención sanitaria una dimensión, la calidad, que puede llegar a ser prioritaria en el caso de patologías crónicas. En este contexto, la medición de los síntomas y percepciones de los padres y niños con fisuras se hace imprescindible para diferenciar los cambios del estado de la enfermedad con el tiempo y orientar tanto las investigaciones epidemiológicas como las estrategias de manejo clínico de estos pacientes pediátricos.

La medición de las percepciones de los niños y padres, y en este caso de la CV, ha de realizarse a través de instrumentos estandarizados y válidos, teniendo los cuestionarios de CV la ventaja de recoger de forma estructurada los problemas más comunes por los que pasan los pacientes, además de graduar su intensidad. La *American Cleft Palate–Craniofacial Association*⁶ publicó en marzo del año 1993 unos parámetros para la evaluación de los pacientes fisurados, concluyendo que todo tratamiento óptimo debería basarse en una serie de principios que se han convertido en una referencia básica a nivel internacional. Entre ellos se incluye que “Las consecuencias del impacto familiar de la malformación no deben ser infravaloradas y deberían ser tratadas dentro del ámbito de un equipo”.

La relevancia del análisis de la CV en los niños afectados de fisuras faciales se acrecienta en la medida que la incidencia de esta patología es relevante, y con ello, su demanda asistencial. El manejo y tratamiento de los niños con fisuras orofaciales constituye un estimable porcentaje en la cartera de pacientes en nuestro Hospital, hasta el punto que en nuestro Centro, la asistencia a estos pacientes se vehiculiza a través de una Unidad Funcional específica que atiende a los pacientes en el Hospital Infantil tanto para quirófanos e ingresos como consultas externas.

Al revisar la literatura científica se observa que son pocos los estudios estandarizados que abordan la CVRS en pacientes con FL/P; la mayoría de ellos han analizado la repercusión de la patología en adultos⁷⁻¹⁰, adolescentes¹¹ y niños¹²⁻¹⁶. Sin embargo pocos han intentado evaluar la CVRS en niños en edad pre-escolar^{17,18}, así como el impacto familiar^{19,20}. A pesar de que la mayoría de estos trabajos internacionales se han publicado en los últimos años y de ser un tema con un importante peso en la actividad clínica diaria, es significativo que no hay artículos publicados en PubMed/MEDLINE por autores españoles que aborden la evaluación de los pacientes fisurados desde una perspectiva multidimensional del estado de salud y con mediciones estandarizadas de CVRS.

Por todo lo anteriormente dicho, el estudio de la CV en base a la opinión de padres y niños cobra importancia para poder aplicar con rigor los protocolos terapéuticos en nuestro entorno. Es por ello que consideramos de especial importancia la realización de un estudio que profundice en esta temática.



Para tal fin, en la presente Tesis Doctoral, pretendemos diseñar un estudio investigación para abordar dos aspectos cruciales en la atención de niños fisurados. Por un lado, efectuar un estudio epidemiológico descriptivo de los pacientes fisurados tratados durante 10 años en nuestro Hospital, llevando a cabo una auditoría de nuestra Unidad con la idea de establecer cuantitativa y cualitativamente el cumplimiento de los principales indicadores de calidad en la atención del paciente fisurado. Por otro lado, medir y analizar la CVRS en niños preescolares con FL/P, con la idea de conocer la opinión de padres y niños para, en base a sus percepciones y principales problemas, estudiar cual es el verdadero efecto que provocan la existencia de un miembro familiar con FL/P, y así poder mejorar los protocolos diagnósticos y terapéuticos.



II

ANTECEDENTES BIBLIOGRÁFICOS

2. ANTECEDENTES BIBLIOGRÁFICOS

2. 1. FISURA LABIO-PALATINA

2. 1. 1. Incidencia

Incidencia Global

La incidencia mundial de FL/P se establece en aproximadamente **uno de cada 700** (500-2.500) recién nacidos vivos¹. Sin embargo, la ausencia de homogeneidad en la obtención de datos (diferencias de origen de las muestras, regiones rurales sin adecuada información, diferentes criterios de clasificación, etc.) pueden dar lugar a fluctuaciones en los ratios de prevalencia.

Distribución geográfica

Las tasas de labio leporino con o sin paladar hendido (LL ± FP) son altas en algunas partes de América Latina y Asia (China, Japón) y bajas en Israel, Sudáfrica y el sur de Europa. Las cifras de fisura palatina aislada (FP) son altas en Canadá y partes del norte de Europa y baja en algunas partes de América Latina y África del Sur .

Dentro de Europa, la tasa es mayor en los países del norte que en la Europa mediterránea (con incidencias por cada 1.000 nacimientos de 1,46 en Holanda, 0,67 en Francia y entre 0,01 y 0,82 en España)²¹ (Figura 1).

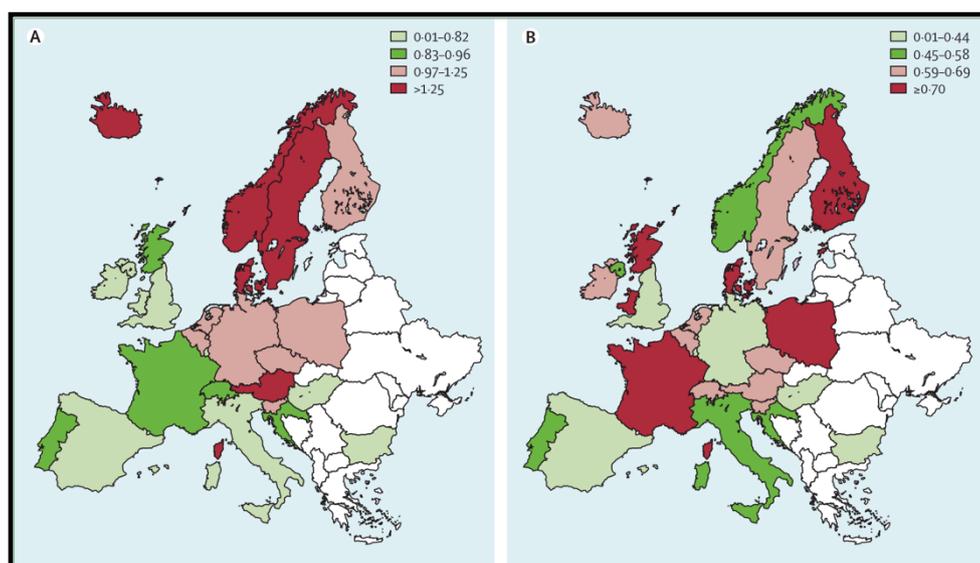


Figura 1. A) Incidencia Fisura Labial aislada o asociada a paladar fisurado. B) Incidencia Fisura Palatina aislada.

Etnia

Existen diferencias étnicas significativas en la incidencia de FL/P, con los ratios más altos en la población asiática (incidencia de 2,13 por 1.000 nacimientos en Japón) y americana nativa (incidencia de 2,28:1.000 en Bolivia), valores intermedios en la raza caucásica y los índices más bajos en la población africana (Nigeria 0,21:1.000)²².

En las poblaciones de raza caucásica, la relación de LL \pm FP es de aproximadamente 2:1 (varón: hembras). En las poblaciones japonesas, tanto el LL \pm FP como la FP aislada presentan un exceso en el sexo masculino. El LL es unilateral en el 80% de los casos y afecta con mayor frecuencia al lado izquierdo, dato que parece confirmarse en todos los grupos étnicos.

Sexo

Numerosos estudios epidemiológicos en diferentes poblaciones han reflejado una distribución asimétrica por sexo tanto en los casos de LL como de FL aislada: los varones se afectan más frecuentemente que las mujeres en LL \pm FP mientras que la FP aislada es más típica en las mujeres. Este hecho pudiera sugerir la existencia de genes con diferente impacto en la formación de la fisura dependiendo del sexo del individuo afecto.

2. 1. 2. Etiopatogenia

Los procesos celulares de proliferación, diferenciación y apoptosis, esenciales para la correcta morfogénesis del labio y paladar, están regulados por una serie de complejas vías de señalización molecular. En la etiología de la FL/P se han señalado múltiples factores, genéticos, ambientales o teratogénicos, que pudieran alterar estas vías de transducción.

La clasificación de las fisuras orofaciales aisladas o asociadas a otras anomalías congénitas está descrita en la *International Perinatal Database of Typical Oral Clefts* (IPDTC 2011)²¹ modificada posteriormente para la adición de nuevos subgrupos de fisuras. En ella se recomienda clasificar las fisuras en no sindrómicas y sindrómicas según se presenten como malformaciones aisladas (casos no sindrómicos que representan el 70% de los casos de LL \pm FP y el 50% de FP) o asociadas con otras alteraciones clínicas características (se estima que aproximadamente entre el 30% y 50 % de las fisuras ocurren en el contexto de casos malformativos sindrómicos subyacentes)²³.

Factores genéticos

FL/P sindrómicas: Las mutaciones genéticas únicas y las anomalías cromosómicas son los mecanismos más frecuentemente implicados en los casos de fisuras orofaciales sindrómicas. La base de datos del proyecto “Online Mendelian Inheritance in Man” (OMIM) incluye más de 500 síndromes con FL/P como parte de su fenotipo. Las fisuras orofaciales se han observado en casos de trisomía de los cromosomas 13, 18, 21 así como en casos de deleciones parciales y duplicaciones de otros cromosomas²⁴. Entre los síndromes más destacados se encuentran el síndrome de Van der Woude, el síndrome Velocardiofacial y la secuencia Pierre-Robin.

El síndrome de Van der Woude (VWS; OMIM 119300) constituye la forma más frecuente de fisura orofacial sindrómica, representando el 2% de todos los casos de FL/P. Se trata de un trastorno por alteración de un único gen con un patrón hereditario autosómico dominante. Clínicamente se caracteriza por LL \pm FP o FP aislada, fistulas o pits labiales e hipodontia, aunque su espectro clínico es muy variable. Kondo y cols²⁵ hallaron que mutaciones en el factor regulador del interferón 6 (IRF6) eran responsables de la mayoría de casos de VWS. Aunque las mutaciones patogénicas pueden aparecer en cualquier región del gen, aproximadamente en el 80% de los casos se han hallado en los exones 3,4,7 y 9.

El Síndrome Velocardiofacial o Síndrome de Delección 22q11.2 (SVCF; OMIM 192430) es un trastorno autosómico dominante caracterizado por la presencia de anomalías cardíacas (defectos conotruncuales tipo tetralogía de Fallot o defectos del septo ventricular), FP abierta o submucosa, incompetencia velofaríngea, facies dismórfica, hipotonía y retraso del desarrollo con dificultad de aprendizaje como hallazgos característicos. El principal mecanismo causal descubierto es la existencia de una microdelección del cromosoma 22 (pérdida de la región 22q11.2).

La secuencia Pierre-Robin se caracteriza por la presencia de micro o retrognatia, distress respiratorio, glosoptosis con FP. Se caracteriza por su alta morbilidad debida al compromiso de vía aérea, a la dificultad para la alimentación y a los problemas de habla. Puede aparecer de forma aislada aunque la mayoría de ocasiones se asocia con un síndrome genético, siendo los más comunes el Síndrome de Stickler y el SVCF, ambos con un patrón de herencia dominante y con múltiples complicaciones clínicas asociadas.

FL/P no sindrómicas: Incluyen un amplio espectro de presentaciones clínicas que varían desde una simple muesca labial unilateral a la afectación bilateral labial con fisura del paladar asociada. Diversas evidencias epidemiológicas tales como la recurrencia familiar (observada en el 20-30% de los casos) o la concordancia entre gemelos (40-60% para monocigotos y 3-5% para dicigotos) sugieren un importante componente genético en la etiología de las FL/P no sindrómicas. Sin embargo, la identificación de genes es complicada por su heterogeneidad, por sus patrones de herencia no Mendelianos y por la existencia de muestras para estudio limitadas.

El análisis de posibles genes implicados en la etiopatogenia de la FL/P se ha realizado mediante los siguientes tipos de estudios²³:

- Análisis de ligamiento y estudios de asociación de genes que han sugerido que diversos loci podrían tener un papel causal en el labio leporino y el paladar, incluidas las regiones en los cromosomas 1, 2, 4, 6, 14, 17, y 19 (TGF α , D4S175, F13A1, TGF β 3, D17S250 y APOC2).
- Estudios de asociación genómica (GWAS) de reciente desarrollo han permitido identificar nuevos loci relacionados con la etiopatogenia de las FL/P, por ejemplo una región “gene desert” en el cromosoma 8q24 implicada inequívocamente en la existencia de una mayor susceptibilidad al desarrollo de una fisura orofacial²⁶.

La identificación de posibles genes causales también se ha realizado mediante el estudio de:

- Genes implicados en la embriogénesis del labio y el paladar, sugeridos mediante estudios en modelos animales (TGF α , MSX1)
- Genes implicados en el metabolismo de factores de riesgo ambientales (MTHFR implicado en el metabolismo del folato o RAR α , receptor nuclear del ácido retinoico)
- Identificación de anomalías cromosómicas en pacientes (SUMO1).
- Genes implicados en casos de FL/P sindrómicos tales como los genes IRF6 (implicado en el VWS), PVRL1 (Síndrome Displasia Ectodérmica), TP63 (responsable del síndrome EEC).

Factores ambientales / Teratógenos

Numerosos elementos y factores han sido investigados en estudios epidemiológicos para establecer su relación con la aparición de fisuras orofaciales²⁷. Un estudio europeo multicéntrico con participación conjunta entre clínicos y científicos denominado “European Collaboration on Craniofacial Anomalies” (EUROCRAN) trata de esclarecer el papel de la interacción genético-ambiental y del estilo de vida en la etiología de las fisuras orofaciales. Entre los diversos factores implicados se encuentran:

1. **Tabaco:** El tabaquismo materno durante primer trimestre se ha relacionado con un incremento del riesgo de desarrollo de FL/P, siendo éste dosis-dependiente.
2. **Alcohol:** La influencia del consumo de alcohol es controvertida aunque en algunos casos se ha observado una mayor incidencia en hijos de madres que consumieron cantidades elevadas de alcohol durante el primer trimestre del embarazo). La combinación de variantes genéticas con actividad enzimática reducida del gen alcoholdehidrogenasa ADH1C asociado a un consumo elevado de alcohol incrementa el riesgo de fisuras orofaciales.
3. **Cafeína.** Se ha manejado como un posible factor etiológico aunque no existen un número suficiente de estudios para sacar conclusiones válidas.
4. **Epilepsia.** Existe un riesgo 10 veces superior en madres epilépticas en comparación con la población general. La asociación puede ser debida a que los fármacos anticomiciales (fenitoína, fenobarbital, ácido valproico) disminuyen los niveles de ácido fólico en sangre, déficit relacionado con mayor incidencia de FL/P.
5. **Diabetes:** La existencia de diabetes, principalmente pregestacional, se ha asociado a la aparición de anomalías no cardíacas incluyendo las fisuras orofaciales.
6. **Corticosteroides:** Aunque tradicionalmente su uso materno en el embarazo ha sido relacionado con la aparición de FL/P, trabajos de reciente publicación señalan que los corticoides no incrementan el riesgo de fisuras orales cuando se utilizan durante el embarazo en ninguna de sus formas de administración (oral, inhalatoria o tópica²⁸).
7. **Nutrición:** Los resultados de los estudios observacionales sugieren un papel de la nutrición materna en las hendiduras orofaciales. En la mayoría de estudios el uso materno de suplementos vitamínicos con ácido fólico en el primer trimestre del embarazo se ha relacionado con una reducción de entre un tercio y tres cuartos de FL/P. EL déficit de Zinc, importante elemento en la migración neuronal, es causante de fisuras en estudios animales y pudiera incrementar el riesgo en humanos.

2. 1. 3. Embriología de las fisuras orofaciales²⁹

El desarrollo craneofacial del embrión ocurre principalmente entre la 4ª y 8ª semanas del proceso embrionario. Las estructuras que formarán la cara en el ser humano están compuestas por 5 primordios faciales que aparecen alrededor del estomodeo (boca) embrionario: *la prominencia frontonasal, 2 procesos maxilares y 2 procesos mandibulares*. Hacia el final de la 4ª semana se desarrollan las placodas nasales (primordios de nariz y cavidades nasales) sobre el borde inferior de la prominencia frontonasal. Alrededor de las mismas se forman las prominencias nasales medial y lateral a partir de la proliferación del mesodermo a este nivel. El espacio dejado entre ambas corresponderá a las fosas nasales.

Al final de la quinta semana los procesos maxilares se desplazan anteriormente, comienzan a unirse con la prominencia nasal lateral a lo largo de la línea del surco nasolacrimal. Este desarrollo establece continuidad entre el ala nasal y la mejilla formada por el proceso maxilar.

Alrededor de las 6 semanas el proceso nasal medial crece hacia abajo para contactar y posteriormente fusionarse (7ª semana) con el proceso nasal medial del lado opuesto formando la columela, suelo nasal, septum caudal así como el prolabio y premaxila (paladar primario). El proceso nasal lateral se encarga de formar las alas nasales y los hueso lacrimales. Por otro lado, a partir del segmento medio del proceso frontonasal, se desarrolla la pirámide nasal (raíz, dorso y punta nasal) (Figura 2).

Posteriormente, durante la 8ª semana los procesos nasales mediales terminan por fusionarse con los procesos maxilares estableciendo la continuidad de los tejidos y completando así la formación de la nariz y labio superior.

La falta de fusión entre el proceso frontonasal y los procesos maxilares origina la fisura labial³⁰. La teoría clásica propuesta por Dursy en 1869, propone que la fisura se forma por la falla en la fusión de los elementos ectodérmicos y mesodérmicos en el área de la fisura.

Posteriormente, la teoría propuesta por Veau en 1938 y Stark en 1954 de penetración mesodérmica plantea que la fisura ocurre a nivel de las líneas de fusión como resultado de una falla en la migración del mesodermo; es la más aceptada actualmente como etiología de las fisuras del labio y paladar primario.

Teorías más recientes como la descrita por Hall³¹ considera que la causa es la deficiencia en la migración o proliferación de tejido de la cresta neural, lo cual está en relación con un gran número de malformaciones craneofaciales referidas como neurocristopatías que incluye las fisuras faciales.

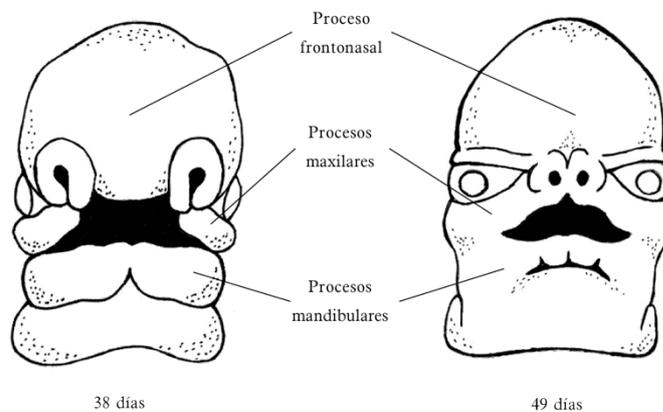


Figura. 2. Embriogénesis de estructuras de la cara.

El paladar se desarrolla a partir de dos primordios palatinos: el paladar primario y el paladar secundario. La formación del paladar secundario (paladar duro posterior al foramen incisivo y paladar blando) toma lugar entre la 8^a - 12^a semana de gestación a partir de los procesos palatinos, siendo éste su período crítico de desarrollo. Los procesos palatinos derivados de los respectivos procesos maxilares inicialmente se encuentran orientados verticalmente hacia abajo a cada lado de la cavidad oral primitiva. Para la adecuada formación del paladar estos procesos palatinos deben migrar hacia una posición horizontal para finalmente fusionarse en la línea media con el septum nasal, la cual se lleva a cabo desde la parte anterior (foramen incisivo) a la posterior (úvula). La fusión y formación de hueso a este nivel se realiza en las áreas en contacto con el septum nasal (Figura 3).

Entre estos procesos se encuentra la lengua, la cual juega un rol importante en este proceso de horizontalización de los procesos palatinos ya que, al moverse hacia delante por el crecimiento de la mandíbula, deja el espacio necesario para el descenso y fusión de los procesos palatinos.

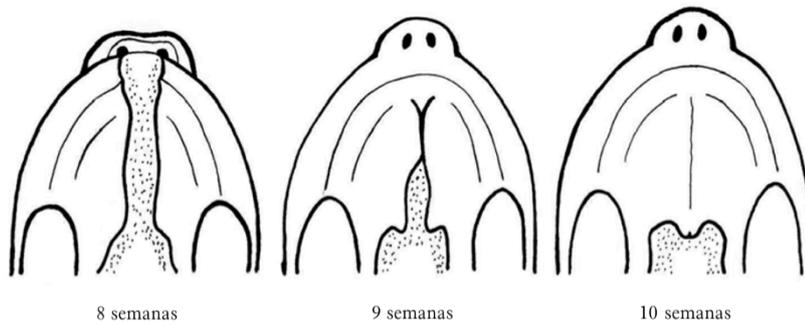


Figura. 3. Embriogénesis del paladar.

En cualquiera de estas etapas pueden ocurrir desequilibrios causados por factores genéticos, mecánicos o teratogénicos dando lugar a la aparición de fisuras. Una gran variedad de moléculas han sido identificadas como responsables de la morfogénesis craneofacial (Figura 4). Entre ellas se encuentran moléculas de la matriz extracelular y factores de crecimiento que actúan como señales de inducción (proteína Shh, factor crecimiento fibroblástico Fgf, proteínas morfogenéticas óseas Bmp, o el factor de crecimiento transformante beta Tgfβ). Se han realizado estudios sobre modelos animales (ratones) que han permitido conocer la influencia de estos factores en las distintas etapas de formación del labio y paladar³².

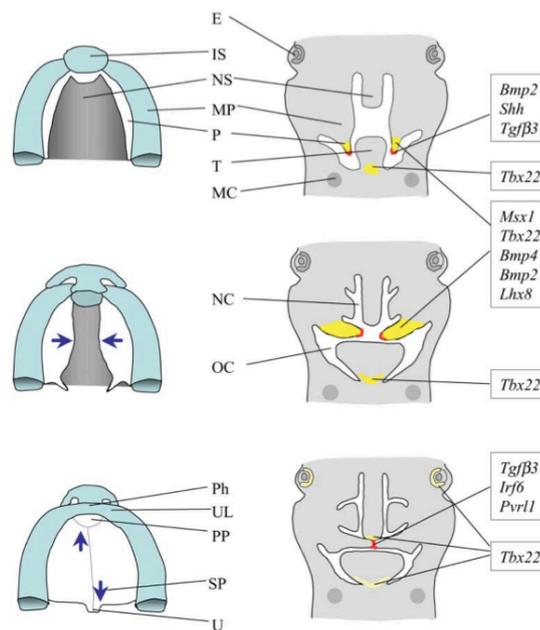


Figura. 4. Genes implicados en el proceso de embriogénesis.

2. 1. 4. Clasificación fisuras orofaciales.

Las FL/P pueden clasificarse en base de múltiples factores tales como la etiología y/o patogenia, consideraciones anatómicas o embriológicas. Son muchas las clasificaciones para las FL/P desarrolladas en los últimos años. Tradicionalmente las fisuras orofaciales se clasifican en base a su fenotipo, que puede variar desde microformas (muesca labial o fisura submucosa) hasta formas completas (fisuras completas de labio y paladar).

Una de las primeras clasificaciones fue la que desarrolló Veau en Europa en 1931 (Tabla 1). Ésta omite algunas de las variaciones comunes de fisuras orales y no incluye las hendiduras del labio o del labio y el alvéolo solo.

CLASIFICACIÓN DE VEAU	
Veau I	Fisura incompleta que afecta solo paladar blando
Veau II	Fisura de paladar blando y duro pero sólo paladar secundario
Veau III	Fisura completa unilateral (blando y duro)
Veau IV	Fisura completa bilateral

Tabla 1. Clasificación de las fisuras de Veau.

La *International Confederation for Plastic and Reconstructive Surgery*, en su congreso del año 1967, estableció una clasificación basada en la embriología clasificando el defecto en primario, si se localiza por delante del agujero nasopalatino (afecta a labio y alvéolo) y secundario, por detrás del agujero nasopalatino (afectando a paladar duro y/o blando) (Tabla 2).

CLASIFICACIÓN DE INTERNATIONAL CONFEDERATION FOR PLASTIC AND RECONSTRUCTIVE SURGERY	
Grupo 1: Fisuras del paladar primario	<ul style="list-style-type: none"> – Labio. – Alvéolo
Grupo 2: Fisuras del paladar primario y secundario	<ul style="list-style-type: none"> – Labio. – Alvéolo – Paladar duro y/o blando (secundario).
Grupo 3: Fisuras del paladar secundario	<ul style="list-style-type: none"> – Paladar duro – Paladar blando

Tabla 2. Clasificación de la International Confederation for Plastic and Reconstructive Surgery.

La *Clasificación de Kernahan y Stark* destaca la importancia anatómica y embrionaria del agujero incisivo, proporcionando un sistema de clasificación gráfico (Figura 5) con una configuración en Y que puede ser dividido en 11 zonas (Tabla 3):

CLASIFICACIÓN DE KERNAHAN Y STARK	
Áreas 1 y 5	Nariz
Áreas 2 y 6	Labio
Áreas 3 y 7	Alveolo
Áreas 4 y 8	Paladar entre alveolo y foramen incisivo
Áreas 9 y 10	Paladar duro
Área 11	Paladar blando

Tabla 3. Clasificación de las fisuras de Kernahan y Stark



Figura 5. Gráfico clasificación de Kernahan y Stark

La *clasificación clínica*, clasificación básica utilizada universalmente, se caracteriza por la descripción anatómica y localización de la FL/P congénita.

Labio leporino (Figura 6)

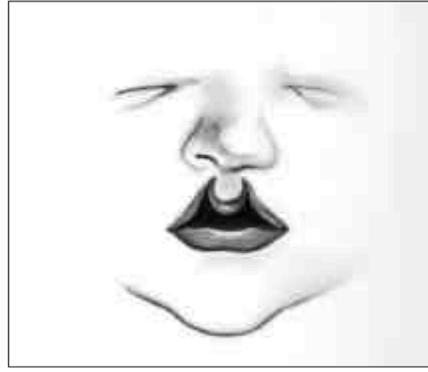
- Unilateral / Bilateral: Según comprometa un lado o dos en la formación del labio superior y fosas nasales.
- Completo / Incompleto: Se basa en el compromiso del suelo nasal o no (banda de Simonart) siendo completa en ausencia de esta estructura anatómica o incompleta cuando está presente.

Fisura palatina (Figura 7)

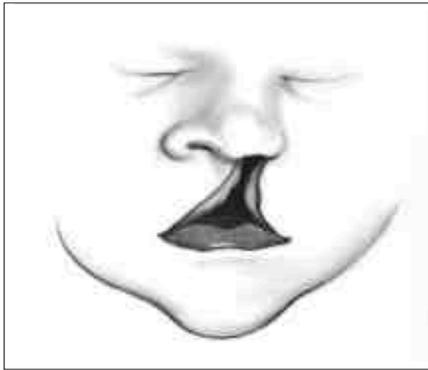
- Unilateral/Bilateral: Se considera unilateral o bilateral según su relación con el vómer nasal.
- Completa / Incompleta: Según la extensión de la fisura desde el paladar primario hacia el secundario.



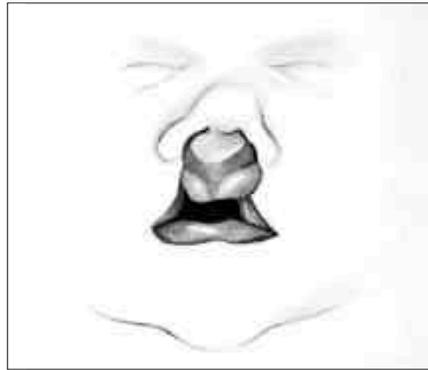
A. Unilateral incompleto



B. Bilateral incompleto



C. Unilateral completo



D. Bilateral completo



Figura 6. Formas clínicas Labio leporino (incompleto / completo; unilateral / bilateral)

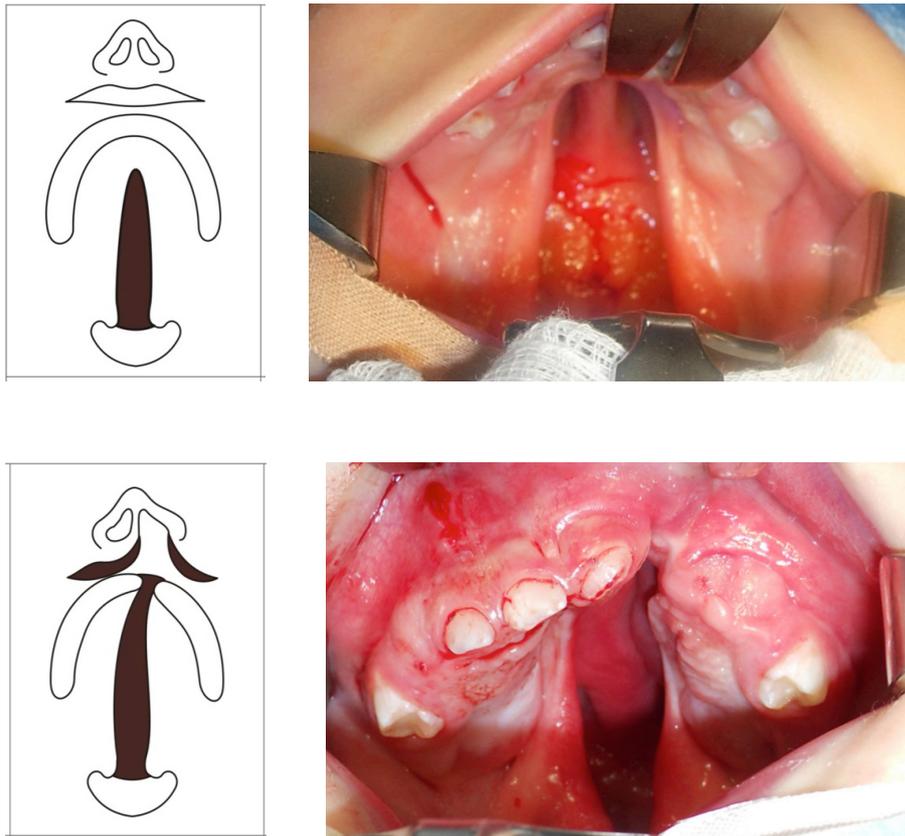


Figura 7. Formas clínicas Fisura palatina (incompleto / completo).

2. 1. 5. Tratamiento

Labio Leporino

Los objetivos principales de la reparación del LL son conseguir la normal apariencia y función de los labios (Tabla 4). Aunque las técnicas varían ampliamente entre los cirujanos, la mayoría coinciden en que la reparación quirúrgica primaria es el determinante más importante de un resultado estético y funcional.

OBJETIVOS PARA LA CORRECTA REPARACIÓN DEL LABIO
• Asegurar correcta unión muco-músculo-cutánea.
• Simetría en el suelo de las narinas/cúpulas alveolares.
• Bermellón simétrico.
• Conservación del arco de cupido.
• Ligera eversión labial.
• Cicatriz escasa, cuya contracción no interfiera con los otros objetivos.
• Filtrum conseguido anatómicamente.

Tabla 4. Objetivos de la queiloplastia.

Momento de la intervención

El momento óptimo para la reparación quirúrgica del labio continúa siendo discutido sin que exista una clara evidencia científica. Algunos autores sugieren el tratamiento quirúrgico intraútero basados en que la cirugía sobre el ectodermo del feto no produce cicatriz^{33,34}. No es del todo conocida la causa pero parece estar en relación con la ausencia de células inflamatorias en el feto, que lleva consigo la ausencia de depósito de colágeno; además no se produce contracción de la cicatriz, de forma que el mecanismo reparativo es la regeneración³⁵; pero en cambio, implican un importante riesgo de lesión fetal, por lo que la cirugía intraútero se reserva para malformaciones vitales en las que la intervención postnatal no dé, generalmente, buen resultado³⁶.

Algunos centros han abogado por la cirugía en el período neonatal precoz, con un beneficio teórico en el aspecto de la cicatriz y la adaptabilidad del cartílago nasal, minimizando así la deformidad nasal³⁷. Sin embargo, la intervención a edades muy temprana ha demostrado que no mejora el resultado además de que el manejo de las estructuras tan pequeñas dificulta la cirugía³⁸. Para minimizar los riesgos de la anestesia, tradicionalmente se ha utilizado la “regla de los 10” para establecer el momento adecuado para la intervención:

- Más de 10 semanas de vida.
- Más de 10 g Hemoglobina.
- Más de 10 libras de peso (4,5 Kg).
- Más de 10.000 leucocitos/ mm³.

En general en la mayoría de protocolos de cada centro se prefiere realizar la reparación de labio unilateral entre los 3 y 6 meses: los riesgos de la anestesia son más bajos, el niño es más capaz de resistir el estrés de la cirugía y los elementos de los labios son más grandes permitiendo una meticulosa reconstrucción.

Técnica quirúrgica

El primer caso documentado de reparación de un LL unilateral fue llevado a cabo en el año 390 a.C por un médico Chino desconocido de la dinastía Tang. Ambroise Paré (1564) reparó una fisura unilateral refrescando los bordes y uniendo los dos lados de la fisura con una aguja larga con un hilo en forma de ocho.

Se han realizado múltiples esfuerzos para mejorar los resultados estéticos y funcionales obtenidos con técnicas de cierre de línea recta^{39,40} mediante varios tipos de reparaciones geométrica con colgajos de espesor total del labio (Figura 8). Estas técnicas fueron diseñadas para irregularizar las cicatrices y prevenir la contractura de la cicatriz vertical y corte del labio superior. El gran auge vino a finales del s. XIX y principios del s. XX con las aportaciones de LeMesurier⁴¹, Tennison^{42,43} y Millard, siendo este último el que diseñó la técnica más comúnmente usada actualmente⁴⁴. En la reparación del labio fisurado unilateral se han desarrollado un número amplio de técnicas y modificaciones cuya elección está en función de la experiencia del cirujano y de la corrección del defecto nasal asociado que se quiera conseguir.

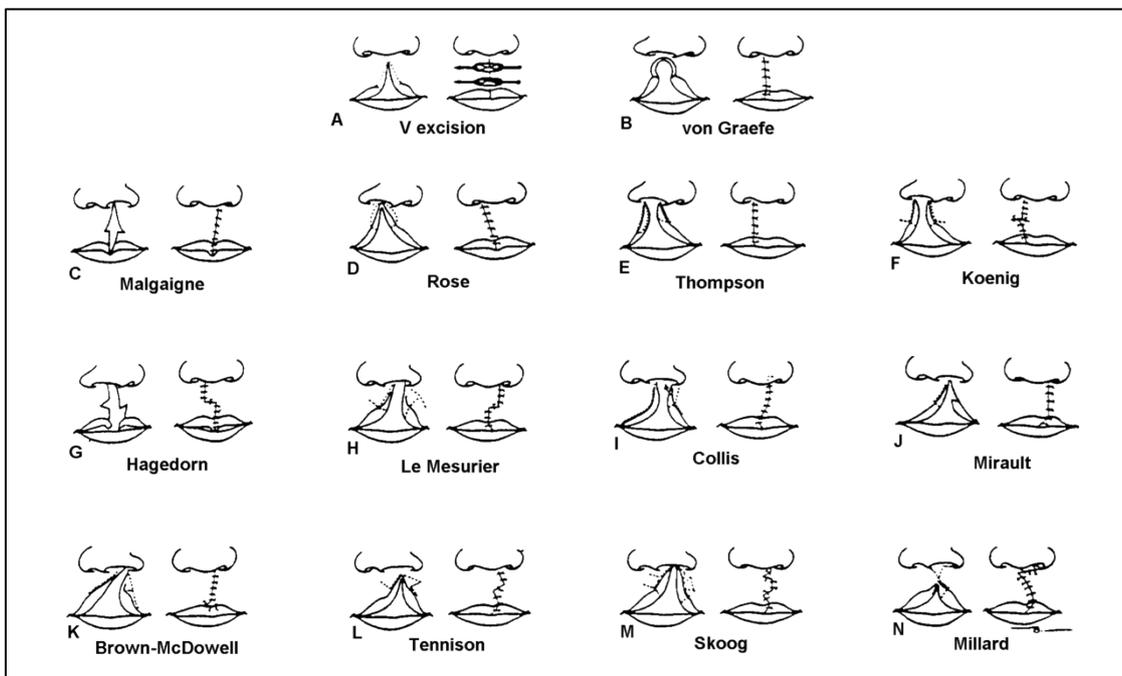


Figura 8 . Técnicas quirúrgicas de reparación de labio leporino.

Todas ellas presentan ventajas y desventajas a la hora de su aplicación, dejando cicatrices visibles que se ven sometidas a una retracción que puede producir cambios en el resultado final. En general deben evitarse las técnicas que introducen tejidos laterales del labio desplazados a la línea media o que deformen el arco de Cupido, manteniendo una simetría labial y nariz balanceada, todo ello con mínima cicatriz.

Las técnicas más empleadas actualmente son:

- Técnica de cierre en línea recta: Técnica de Rose-Thompson
- Técnica de los colgajos cuadrangulares de Le Mesurier.
- Técnica de colgajos triangulares: Técnica de Tennison-Randall (Figura 9).
- Técnica de los colgajos triangulares equiláteros de Malek.
- Técnica de rotación avance de Millard (Figura 10) y su modificación con la incisión de back cut (Millard II) (Figura 11).

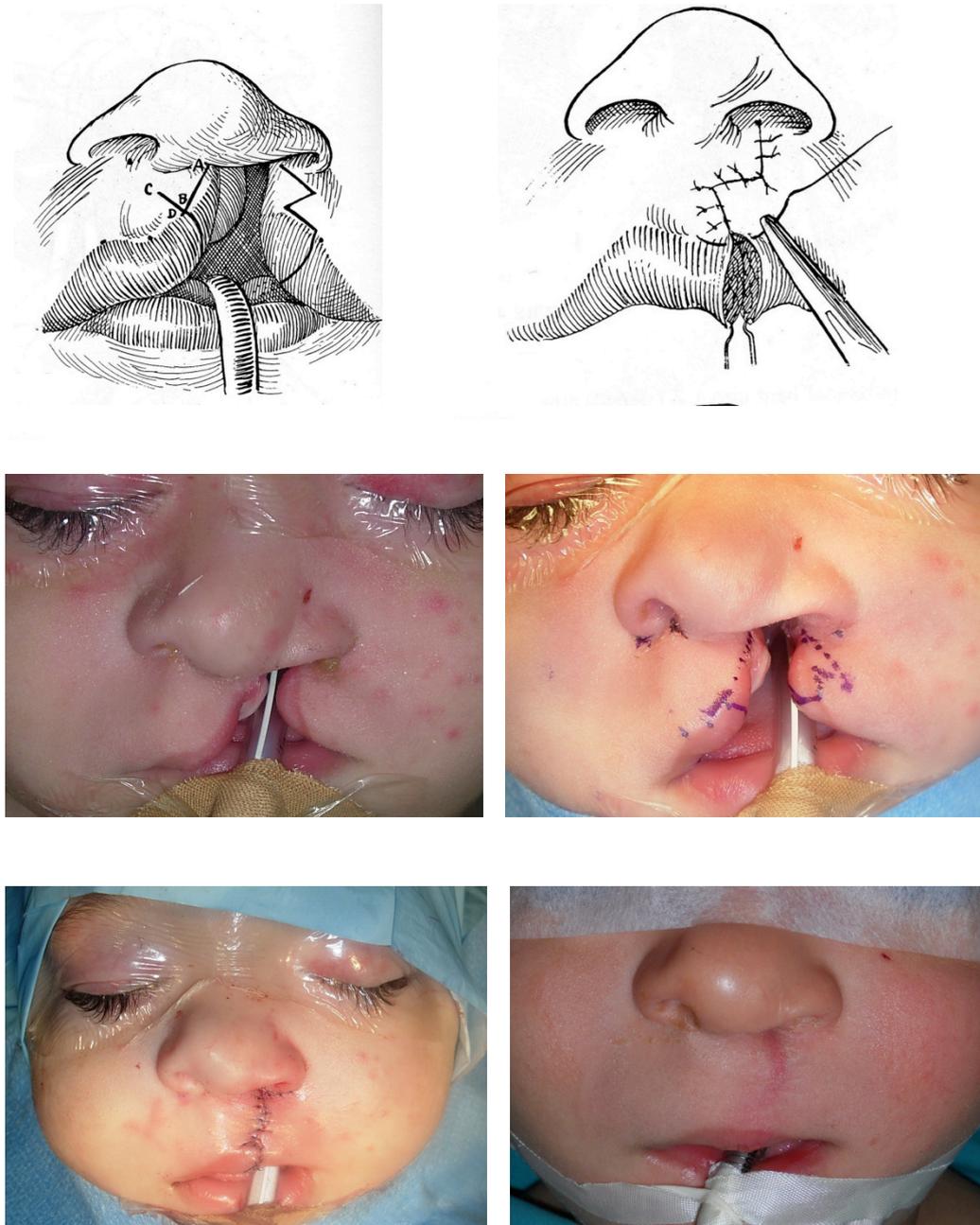


Figura 9. Queiloplastia de Tennison-Randall

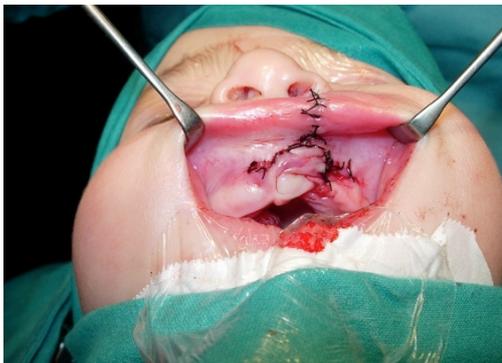
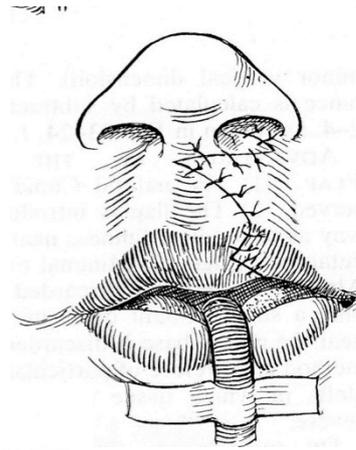
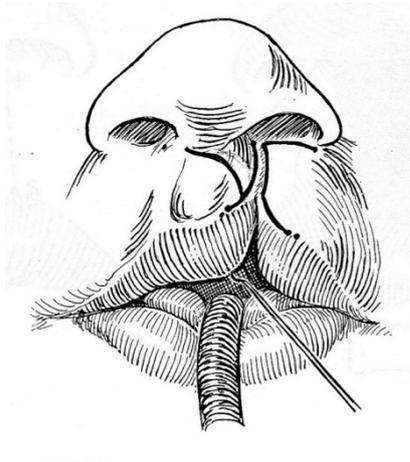
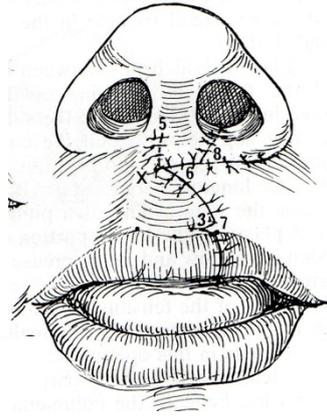
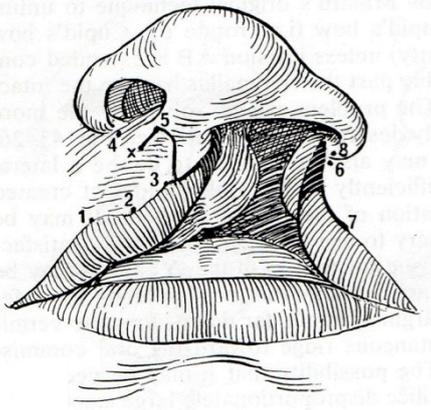


Figura 10. Queiloplastia Millard I



J. Queiloplastia Millard II

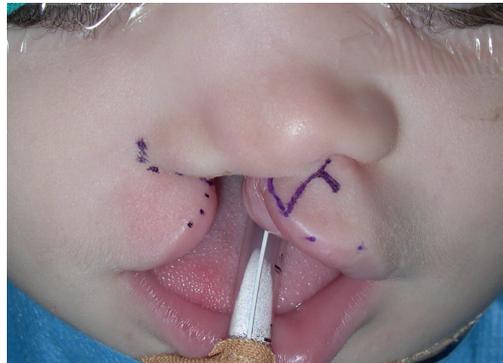


Figura 11. Queiloplastia Millard II

Fisura Palatina

Los criterios mayores para establecer el éxito de la cirugía reparadora de paladar son el correcto desarrollo del habla, adecuado crecimiento máxilofacial y cierre completo del defecto palatino (Tabla 5).

OBJETIVOS PARA LA CORRECTA REPARACIÓN DEL PALADAR
<ul style="list-style-type: none">• Obtener un buen resultado anatómico del paladar con la reconstitución de los planos mucosos nasal y oral así como el plano muscular.
<ul style="list-style-type: none">• Lograr un buen resultado funcional del paladar blando con una adecuada reconstrucción del esfínter velofaríngeo.
<ul style="list-style-type: none">• Minimizar, en lo posible, las áreas denudadas y el efecto del acto quirúrgico primario sobre el crecimiento del maxilar.
<ul style="list-style-type: none">• Reconstrucción individualizada de la fisura palatina basada en la severidad y forma de ésta.

Tabla 5. Objetivos de la palatoplastia.

Con respecto al objetivo de lograr un adecuado habla, se han desarrollado dos ideas principales:

- una se centra en lograr el cierre completo de la hendidura.
- la otra está diseñada para lograr el retroposicionamiento máximo del paladar blando para obtener el mejor cierre velofaríngeo posible.

En lo que respecta al crecimiento maxilofacial son evidentes dos grandes tendencias también:

- una se centra en el cierre completo de la FP en un procedimiento quirúrgico.
- la otra está diseñada para el cierre precoz del velo del paladar y el retraso en el cierre del paladar duro.

Está aceptado de forma genérica que que el habla y la audición mejoran con el cierre precoz del defecto palatino (antes de los 24 meses de edad) y que el cierre diferido (después de los 4 años) se asocia con una menor restricción del crecimiento centrofacial⁴⁵.

El momento óptimo de reparación del paladar hendido está en el equilibrio entre conseguir de la función velofaríngea normal para optimizar el desarrollo del habla frente a la desventaja potencial de alteración facial y crecimiento secundario al trauma quirúrgico precoz. Los trabajos de Graber⁴⁶ a finales de 1940 sobre las restricciones del crecimiento del maxilar tras el cierre temprano del paladar se acompañaron de una recomendación de demora la cirugía hasta los 4 a 6 años de edad. Debido a la pésimas consecuencias de esta recomendación sobre el desarrollo del habla, el consenso actual es que la reparación del paladar hendido debe ser completado antes de 18 – 24 meses de edad como punto de equilibrio entre el habla y crecimiento facial.

El cierre completo de la fisura del paladar en una sola intervención parece ser esencial para evitar la aparición de fístulas oronasales y por lo tanto, la necesidad de nuevos procedimientos para su cierre, añadiendo cicatrices en el paladar.

La reparación adecuada debe incluir el cierre en dos capas en el paladar duro y el cierre en tres capas en el paladar blando. El cierre completo del plano nasal requiere una adecuada disección de este plano, la liberación del plano nasal del borde posteromedial del paladar duro y en algunos casos la utilización de colgajos de vomer para el cierre anterior. El cierre del plano muscular requiere su desinserción del borde posterior del paladar duro, la reorientación de las fibras musculares transversalmente para su aproximación en la línea media. El cierre de la mucosa oral debe ser libre de tensión para lo cual puede requerir incisiones de relajación laterales o la movilización medial de los pedículos palatinos mediante su disección o la fractura del hamulus.

En las técnicas quirúrgicas para el paladar fisurado han aparecido diversas tendencias (Figura 12). La palatoplastia se centra sobre todo en tres técnicas básicas, que siguen siendo la base de la cirugía del cierre del paladar aunque han aparecido combinaciones y modificaciones de éstas.

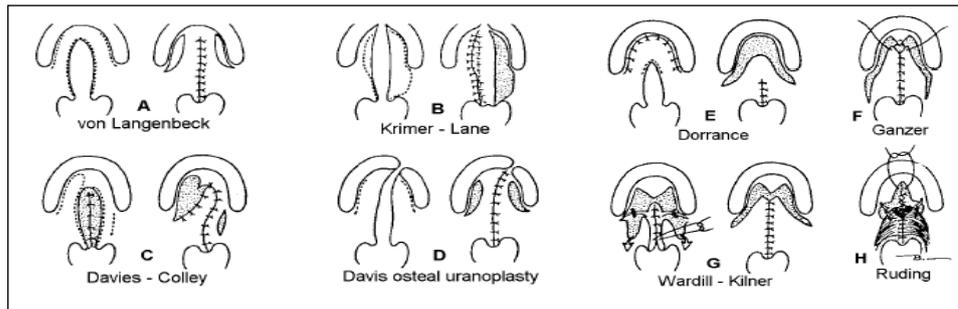


Fig 12. Técnicas de estafilorrafia

La técnica de von Langenbeck es la técnica más antigua que continúa todavía en uso (Figura 13). Se basa en el tallado de colgajos bipediculados sin maniobra de pushback con incisiones laterales de relajación. Sus ventajas radican en la menor agresión del periostio evitando el déficit de crecimiento maxilar y con un resultado en el habla similar a otros procedimientos⁴⁷.

La palatoplastia de Veau-Wardill-Kilner^{48,49} permite un alargamiento del paladar en un único procedimiento. Se basa en el tallado de colgajos mucoperiostícos unipediculados y su aproximación medial directa o en V-Y (Figura 14).

La técnica de Furrow⁵⁰ fue desarrollada para mejorar los resultados en el habla. Se basa en el tallado de una doble zetaplastia opuesta en el paladar blando permitiendo su elongación y una adecuada restauración anatómica de la musculatura. El principal problema de esta técnica es la dificultad del cierre sin tensión en fisuras anchas, con una mayor incidencia de fistulas.

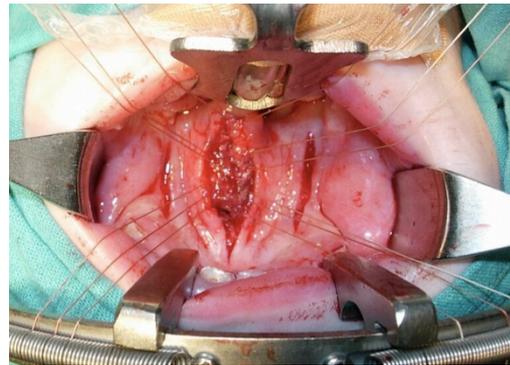
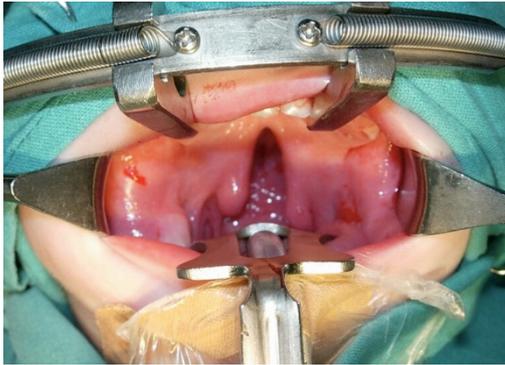
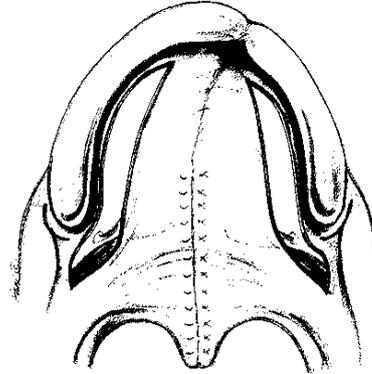
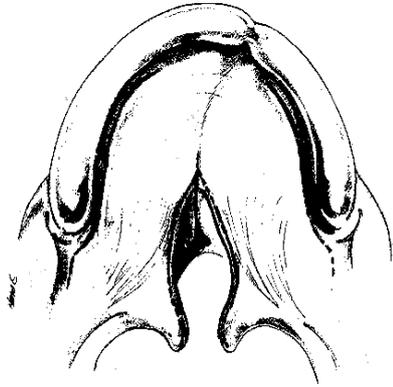


Fig 13. Palatoplastia Von Langenbeck

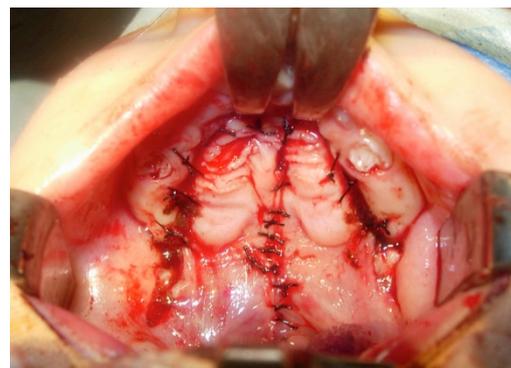
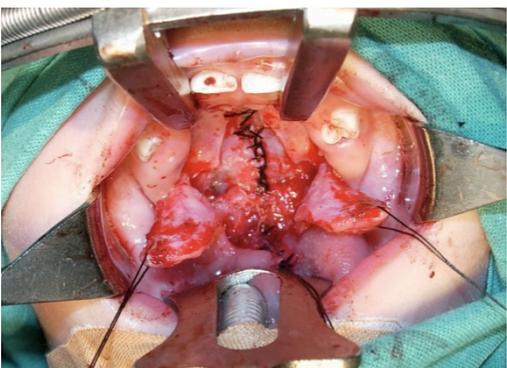
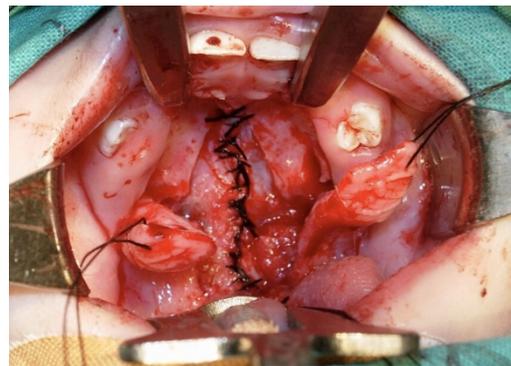
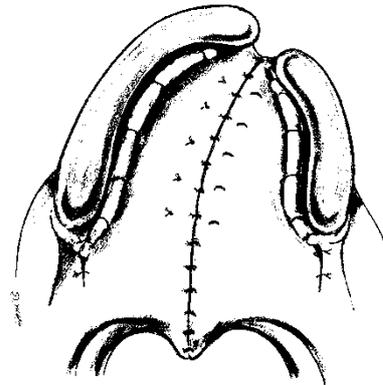


Fig 14. Palatoplastia de Veau-Wardill-Kilner

2. 1. 6. Protocolo manejo paciente fisurado

A. Esquema general.

La *American Cleft Palate–Craniofacial Association* publicó en marzo del año 1993 unos parámetros para la evaluación de estos pacientes, concluyendo que todo tratamiento óptimo debería basarse en una serie de principios que se han convertido en una referencia básica a nivel internacional⁶:

- El tratamiento de los pacientes con anomalías craneofaciales debe ser necesariamente proporcionado por un equipo multidisciplinario.
- Para su funcionamiento óptimo, el equipo multidisciplinario debe valorar un número suficiente de pacientes cada año de forma tal que le permita adquirir una experiencia adecuada en el diagnóstico y tratamiento.
- El momento idóneo para el primer contacto con el paciente es la primera semana de vida, si bien la valoración por el equipo debería ser proporcionada a cualquier edad.
- Las consecuencias del impacto familiar de la malformación no deben ser infravaloradas y deberían ser tratadas dentro del ámbito del equipo.
- Los familiares del paciente deben recibir información detallada sobre los tratamientos recomendados, opciones, riesgos, beneficios y costes para que puedan tomar decisiones bien informados y preparar adecuadamente al niño para todo el programa de tratamiento previsto.
- Todo el programa de tratamiento debe ser desarrollado dentro del marco de las recomendaciones del equipo multidisciplinario.
- El tratamiento debe ser realizado en la medida de lo posible en los centros más próximos al domicilio del paciente, si bien la atención quirúrgica más especializada debe ser llevada a cabo solo en Hospitales de tercer nivel con equipos multidisciplinarios.

La composición de los equipos multidisciplinares debería englobar miembros de todas las áreas relacionadas con el tratamiento completo de estos pacientes (cirugía cráneo-máxilofacial pediátrica, otorrinolaringología pediátrica, pediatría, logopedia y terapia del lenguaje, anestesiología pediátrica, enfermería pediátrica, psicología clínica, odontólogos-ortodoncistas, asistentes sociales, etc.).

Los procedimientos fundamentales a realizar en la mayoría de estos pacientes según las edades de la actuación y los diferentes tratamientos son (Tabla 6):

EDAD	PROCEDIMIENTO	ESPECIALISTAS
Nacimiento – 1 mes	Primera consulta Ortodoncia prequirúrgica Estudio básico Estudio genético	Pediatra Ortodoncista Cirujano Máxilofacial Genetista
1 a 3 meses	Queiloplastia + rinoplastia primaria	Cirujano Máxilofacial
6 a 9 meses	Terapia del habla	Logopeda
9 meses	Audiometría; Valoración por O.R.L.	O.R.L.
12 a 18 meses	Palatoplastia Tubos transtimpánicos	Cirujano Máxilofacial O.R.L.
3 a 5 años	Control dentición mixta Expansión maxilar	Dentista Ortodoncista
5 años	Valoración I.V.F. Nasofibroscopia	O.R.L. Logopeda
5 a 6 años	Faringoplastia , Cirugías secundarias	Cirujano Máxilofacial
7 a 9 años	Alveoloplastia Ortodoncia	Cirujano Máxilofacial Dentista Ortodoncista
16 a 18 años	Distracción ósea Cirugía ortognática Secuela labio y nariz	Cirujano Máxilofacial Ortodoncista

Tabla 6. Esquema general manejo paciente fisurado.

* Recién nacido – 3 meses

- Evaluación por el neonatólogo que establezca el diagnóstico de la fisura así como la existencia de posibles complicaciones asociadas. Evaluación de la condición general del paciente estableciendo las recomendaciones para su alimentación.

- Evaluación por el genetista que descarte la existencia de síndromes asociados y que ayude a comprender las posibles causas de la deformidad y de los problemas asociados así como aportar información sobre la posible recurrencia en un futuro embarazo.
- Evaluación del cirujano que determinará la severidad de la fisura y la necesidad o no de ortopedia prequirúrgica durante las primeras semanas.

* 3 meses

- CIRUGÍA LABIAL PRIMARIA. Control con el cirujano a la semana y luego a los 3 y 6 meses de no haber complicaciones.
- RINOPLASTIA PRIMARIA en fisuras unilaterales severas, moderadas y bilaterales.
- Evaluación por parte del otorrinolaringólogo sobre la necesidad de colocar tubos de ventilación (miringotomía) y tratamiento de patologías del oído medio asociadas.
- Evaluación por el fonoaudiólogo para iniciar pautas acerca del manejo del lenguaje si el paciente tiene fisura palatina.
- Evaluación por el pediatra para controlar el correcto desarrollo haciendo las recomendaciones respectivas acerca de la alimentación.

* Primer año

- PALATOPLASTIA PRIMARIA. Control con el cirujano a la semana y luego a los 3 y 6 meses.
- Evaluación por el otorrinolaringólogo para determinar posibles deficiencias en la audición. MIRINGOTOMÍA. Colocación de tubos de ventilación en el oído medio.
- Evaluación por el fonoaudiólogo para iniciar terapia postoperatoria cuando este indicada y por el tiempo necesario según cada paciente.
- Evaluación por el pediatra para evaluar desarrollo del paciente según las curvas de crecimiento.

* Dos hasta Cinco años

- Revisión de posibles secuelas (fístulas palatinas, labio y nariz) previa al inicio de la etapa escolar.

- Evaluación conjunta por cirugía y foniatra para determinar la presencia de incompetencia velofaríngea.
- CIRUGÍA DE CORRECCIÓN DE IVF. Esta cirugía se debe llevar a cabo alrededor de los 5 años.

* Seis años (Periodo de dentición mixta)

- Evaluación con ortodoncista para preparación del arco dental previo al injerto óseo alveolar. Indicación de radiografía para determinar posición del canino o incisivo lateral en la fisura.
- INJERTO ÓSEO ALVEOLAR. Con injerto de hueso esponjoso tomado de cresta iliaca o tibia. Este se debe hacer antes de la erupción del diente adyacente a la fisura. Se hace la corrección de fistulas alveolares en este tiempo.
- Evaluación por pediatría para determinar desarrollo normal del niño.

* Trece – Dieciocho años (Edad en que el paciente completa la madurez ósea)

- Evaluación por ortodoncista y cirujano para determinar problemas en oclusión y alteración en el desarrollo del tercio medio de la cara que pueda requerir intervención. Se realiza estudio cefalométrico y toma de modelos. Se iniciará tratamiento ortodóncico necesario según cada caso.
- DISTRACCIÓN OSTEOGÉNICA: Para el tratamiento de pacientes con hipoplasia maxilar severa mediante la aplicación de fuerzas extraorales para corregir la retrusión maxilar en pacientes en crecimiento.
- CIRUGÍA ORTOGNÁTICA. En caso de confirmarse diagnóstico de maloclusión dental y el paciente haya alcanzado la madurez ósea. La cirugía de avance maxilar (Le Fort I) es la más común, pero esto depende de la naturaleza de la deformidad la cual es variada.
- RINOPLASTIA SECUNDARIA. Es la cirugía definitiva de revisión de la nariz y labio.
- Evaluación por el foniatra en caso de existir hipernasalidad post cirugía ortognática.

B. Protocolo quirúrgico Hospital Universitario Virgen del Rocío.

1. Labio Leporino

Fisura labial unilateral

- Cirugía labial primaria (3 – 6 meses edad) (Técnica Millard)
 - Fisura incompleta: Tennison-Randall / Millard I
 - Fisura completa: Millard II
- Cirugía nasal primaria
- Reparación de la fisura alveolar (6 – 8 años)

Fisura labial bilateral

- Molde nasoalveolar.
- Cirugía labial primaria (3 – 6 meses edad) (Técnica Millard).
 - Según severidad: 1 ó 2 tiempos.
- Cirugía nasal primaria
- Reparación de la fisura alveolar (6 – 8 años)

2. Fisura palatina

Fisura palatina incompleta

- Técnica de incisiones mínimas (Von Langenbeck) (18 meses)
- Colgajo vómer uni-bilateral si necesario

Fisura palatina completa

- Palatoplastia de 2 colgajos (Veau-Wardill-Kilner) (12 – 18 meses)
- Colgajo vómer uni-bilateral si necesario

3. Corrección de secuelas

- Cierre de fístulas palatinas a los 2 años de edad.
- Revisión labio nariz a los 5 años.
- Cirugía de corrección de la IVF: (5 años de edad)
 - Faringoplastia de base superior
 - Z-plastia de Furlow
 - Veloplastia intravelar secundaria
 - Faringoplastia San Venero-Roselli

4. Distracción ósea / Cirugía ortognática (16 años de edad / adulto)

5. Rinoplastia definitiva

C. Otros protocolos internacionales.

Los protocolos de tratamiento para el manejo de niños con LL y FP pueden variar notablemente en los países desarrollados. En Europa entre 1996 y 1999 se desarrolló el programa “Standards of Care for Cleft Lip and Palate in Europe: EUROCLEFT⁵¹”, fundado por la Comisión Europea dentro del ámbito de los programas BIOMED II e INCO COPERNICUS. El objeto de este proyecto fue establecer una red de comunicación entre los diferentes equipos de tratamiento del paciente fisurado, con la ambición de mejorar la eficacia y eficiencia de sus resultados. Con este fin se realizó un registro de los diferentes equipos existentes con la idea de uniformizar sus criterios y protocolos de trabajo y de garantizar su adecuación y actualización en la materia.

Sin embargo, los resultados de una encuesta realizada en el ámbito de este proyecto demuestran la gran diversidad de prácticas que existen en toda Europa para la atención quirúrgica de la FL/P completa unilateral debido a la ausencia de una base de pruebas sólidas para la selección de los protocolos de tratamiento⁵¹ (Tabla 7).

En la actualidad encontramos 17 secuencias quirúrgicas posibles para el cierre de una fisura a pesar de que una gran mayoría de grupos (43% de los equipos) realizan el cierre del labio en la primera operación y el cierre conjunto del paladar duro y blando en un segundo tiempo.

De los 201 equipos analizados, que realizan tratamiento quirúrgico primario para este tipo de defecto, se encontraron 194 protocolos diferentes (Figura 15): diez de los protocolos (5%) realizan el cierre completo en una operación; 144 equipos, que representan el 71% del total, realizan el cierre en dos intervenciones; tres operaciones son necesarias para el cierre en 43 protocolos (22%); en 4 protocolos (2% de los casos) son necesarias cuatro intervenciones para completar el cierre. Alrededor de la mitad de los equipos utiliza técnicas de ortopedia prequirúrgica con placas y en algunos grupos también se emplea dispositivos para ayudar en la alimentación.

PRIMERA INTERVENCIÓN	SEGUNDA INTERVENCIÓN	TERCERA INTERVENCIÓN	CUARTA INTERVENCIÓN	%
Cierre labio	Cierre paladar duro y blando			42,8
Cierre labio	Cierre paladar blando	Cierre paladar duro		15,3
Cierre labio y paladar duro	Cierre paladar blando			10,4
Cierre labio y paladar blando	Cierre paladar duro			10,0
Cierre labio, paladar duro y blando				5,0
Cierre labio	Cierre paladar blando	Cierre paladar duro e injerto óseo alveolar		3,5
Cierre labio y paladar blando	Cierre paladar duro y gingivoperiostioplastia			2,5
Cierre labio y alveolo	Cierre paladar duro y blando			2,0
Cierre paladar blando	Cierre labio y paladar duro			2,0
Adhesión labial	Cierre labio	Cierre paladar blando	Cierre paladar duro	1,5
Cierre labio y alveolo	Cierre paladar blando	Cierre paladar duro		1,0
Adhesión labial	Cierre labio, paladar duro y blando			1,0
Adhesión labial	Cierre labio y paladar duro	Cierre paladar blando		1,0
Cierre paladar duro y blando y alveoloplastia	Cierre labio			0,5
Cierre labio y paladar blando	Cierre paladar duro e injerto óseo alveolar			0,5
Adhesión labial	Cierre labio	Cierre paladar duro y blando		0,5
Cierre labio	Cierre paladar blando	Gingivoperiostioplastia	Cierre paladar duro	0,5
Total				100

Tabla 7. Protocolos quirúrgicos internacionales (modificado de Shaw y cols⁵¹).

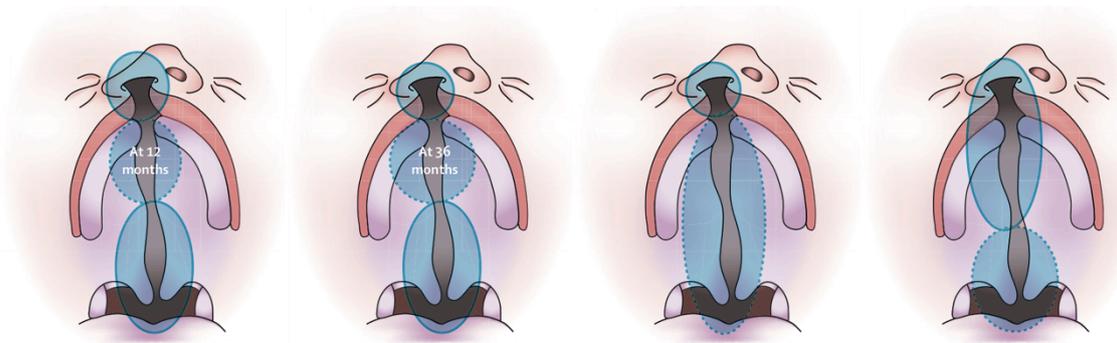


Figura 15. Esquemas más habituales de manejo de FLP unilateral completa.

Estas incertidumbres en el tratamiento indican la escasez de ensayos clínicos aleatorizados publicados de la atención de los niños con FL/P. La realización de estos estudios presenta retos importantes para la planificación y comparación de las técnicas quirúrgicas, ya que los protocolos de ensayo debe tener en cuenta la curva de aprendizaje quirúrgico⁵²⁻⁵⁴.

En lo único en lo que existe consenso en la comunidad quirúrgica es que son necesarios estudios prospectivos a largo plazo bien diseñados antes de poder establecer un protocolo principal de tratamiento de niños con FL/P.

2. 2. CALIDAD DE VIDA RELACIONADA CON LA SALUD

2. 2. 1. Concepto de Calidad de Vida

La CV puede ser concebida como un concepto antiguo y reciente a la vez: si bien el tema de la CV o de la “buena vida” está presente en los debates sobre bienestar y felicidad desde la época de los antiguos griegos (Aristóteles), es reciente porque la utilización del término tiene su origen en los años 60 a raíz del interés por el bienestar humano y por la evaluación del cambio social en los Estados Occidentales⁵⁵.

A lo largo de la historia, el término ha tenido diversas connotaciones: para las civilizaciones antiguas la felicidad (definida luego como CV) se centra en el cuidado de la salud del sujeto, fundamentalmente en los aspectos de la alimentación e higiene personal⁵⁶; posteriormente durante la Edad Media pasa a centrarse en la preocupación por la salud e higiene pública; en el siglo XIX se extiende al ámbito social y político incluyendo los derechos humanos, laborales y ciudadanos; ya en el siglo XX, tras la segunda guerra mundial, el avance de la industrialización trae el desarrollo económico y las mejoras en las condiciones generales de vida. La economía de bienestar introduce la felicidad como expresión de la posibilidad de consumir y la capacidad de acceso a bienes materiales, es decir, la idea del bienestar de la población se refleja en el concepto de *renta per cápita*.

Durante la década de los 50 y a comienzo de los 60, debido al auge de las ciencias sociales, pasa a cobrar relevancia el concepto de nivel de vida más allá del aspecto material, integrando otras áreas de necesidades de la población: el Producto Interior Bruto y el Ingreso per Cápita pasan a ser medidas insuficientes del bienestar de los ciudadanos. Es en esta época cuando aparece por primera vez el término *calidad de vida*: según algunos autores fue el ex presidente norteamericano Lyndon B. Johnson la primera persona pública en utilizar el término en 1964⁵⁷. Cobra auge el interés por el bienestar social y su medición a través de *los indicadores sociales*, los cuales se caracterizan por ser medidas objetivas y normativas de una población o grupo determinado.

Así, en 1954 un grupo de expertos de las Naciones Unidas sugiere que las medidas del bienestar no sólo deben basarse en mediciones monetarias sino que deben fundamentarse en los diferentes componentes que conforman el nivel de vida. A partir de dichas conclusiones, un Comité de Especialistas de la Organización Naciones Unidas (ONU) publica un informe⁵⁸

sobre la definición y medición internacional del nivel de vida en el concluyen que el modo más satisfactorio es proceder a la medición de aspectos o partes de las condiciones generales de vida claramente delimitados que reflejen objetivos generalmente aceptados de la política social y económica en el orden internacional: esferas separadas tales como la salud, la nutrición, la vivienda, las condiciones de empleo, educación, medio ambiente, seguridad, se consideran como "componentes" del nivel de vida y se propone expresar estos componentes por medio de medidas o "indicadores" estadísticos concretos.

Es ya a finales de los años 60 y en la década de los 70 cuando el concepto de CV se vincula a una noción que incorpora medidas subjetivas, es decir, evaluaciones que incluyen aspectos como los sentimientos personales de felicidad o satisfacción. A partir de entonces hay una evolución muy significativa del concepto de CV que implica pasar de entender el bienestar en términos objetivos a incluir la perspectiva subjetiva de satisfacción con la vida. Este nuevo perfil le da una entidad propia, diferenciándolo de los indicadores sociales y acentuando la percepción del sujeto sobre su vida y sobre las condiciones objetivas de su existencia. En este contexto surgen autores de gran repercusión como Andrews, Campbell, Converse o Flanagan, entre otros.

Desde los años 80 se ha venido desarrollando una consolidación del concepto de CV. Los avances de los últimos tiempos han conseguido incrementar la comprensión del concepto, su importancia y su uso aunque algunos aspectos del constructo CV se encuentran en su etapa infantil (Schalock y Verdugo, 2002)⁵⁹ y hoy siguen siendo motivo de debate.

La CV es un término amplio que se refiere al bienestar físico, emocional y social de las personas, así como a la capacidad para desenvolverse y desarrollar las tareas típicas de la vida cotidiana. Se trata de un concepto extenso y complejo que engloba la salud física, el estado psicológico, el nivel de independencia, las relaciones sociales, las creencias personales y la relación con los elementos esenciales del entorno.

Uno de los primeros en elaborar una definición sobre la CV es Lawton⁶⁰ quien la entiende como “la valoración multidimensional, tanto con criterios intrapersonales o subjetivos como socio-normativos u objetivos, del sistema persona-ambiente de un individuo en relación al pasado, presente y futuro”.

Felce y Perry (1995)⁶¹ establecen su visión de CV constituida por tres elementos en interacción:

- 1.- Las condiciones objetivas de vida de los individuos y sus circunstancias.
- 2.- El bienestar subjetivo, definido como la satisfacción personal con esas condiciones y con el estilo de vida.
- 3.- Los valores personales y aspiraciones.

Cummins⁶² (1996) propone la siguiente definición: “La CV es tanto objetiva como subjetiva y cada axioma existe en el conjunto de siete dominios: bienestar material, salud, productividad, intimidad, seguridad, presencia en la comunidad y bienestar emocional. Los dominios objetivos comprenden medidas culturalmente relevantes de bienestar objetivo. Los dominios subjetivos comprenden la satisfacción general sopesada por la importancia que tienen para el individuo”.

En este sentido se señalan dos ámbitos básicos de la CV que la mayoría de los autores comparten: la dimensión objetiva (condiciones de vida experimentadas por las personas) y la dimensión subjetiva (la valoración del individuo sobre distintos aspectos de su existencia).

Teniendo en cuenta los procesos perceptivos y en un intento por unificar los distintos criterios y posiciones existentes, el grupo de trabajo WHOQOL de la Organización Mundial de la Salud (OMS) en 1994 establece una serie de características que definen a la CV⁶³:

- a. Es un concepto multidimensional ya que engloba la percepción de la satisfacción en un determinado número de áreas.
- b. Es un concepto subjetivo ya que se refiere a la valoración que hace una persona sobre su vida y refleja la percepción de bienestar.
- c. Incluye tanto funcionamientos positivos como dimensiones negativas.

Bajo estas premisas la OMS define la CV como la “percepción del individuo sobre su posición en la vida, en el contexto de la cultura y sistema de valores en el cual él vive, en relación a sus objetivos, expectativas, estándares e intereses”⁶⁴. Asimismo propone seis dimensiones compuestas por diversos subdominios que describen aspectos fundamentales de la CV en todas las culturas:

- Un área física (p.ej. la energía, la fatiga).
- Un área psicológica (p.ej. sentimientos positivos).
- Un nivel de independencia (p.ej. movilidad).
- Las relaciones sociales (p.ej. apoyo social práctico).
- El entorno (p.ej. la accesibilidad a la asistencia sanitaria).
- Las creencias personales/espirituales (p.ej. significado de la vida).

2. 2. 2. Salud y Calidad de Vida

La definición de salud más aceptada en la actualidad es la propuesta por la OMS que la define como “un estado de completo bienestar físico, psicológico y social, y no únicamente la ausencia de enfermedad”⁶⁵. A pesar de que ha sido criticada por ser una expresión de deseos al incluir el concepto utópico de “completo bienestar”, contiene en su fórmula la idea de que la salud tiene componentes objetivos y subjetivos: es decir, que uno puede estar objetivamente sano pero subjetivamente enfermo y viceversa, por lo que es la combinación positiva de estos dos componentes lo que debemos considerar salud.

Como la salud y la enfermedad no son estados estáticos, la OMS define en 1980⁶⁶ tres estadios jerárquicos de acuerdo con las consecuencias personales y sociales que una determinada enfermedad genera en el individuo:

- Deficiencia (*impairment*): anomalía o pérdida de una parte del cuerpo o de una función fisiológica mental, sensorial y orgánica.
- Discapacidad (*disability*): restricción o incapacidad para realizar actividades consideradas como normales para el ser humano (ver, comer, beber, andar, hablar, etc.) generalmente derivadas de alguna deficiencia.
- Minusvalía (*handicap*): limitación o imposibilidad de realizar con plenitud los roles sociales acordes a la edad y el sexo en una determinada cultura: dificultades para desarrollar una vida independiente, rendimiento laboral, rendimiento social, rendimiento familiar, etc. son consecuencias de las deficiencias y/o discapacidades.

Recientemente, la OMS ha publicado una clasificación basada en su antecesora⁶⁷, en la que no se utilizan términos negativos como *deficiencia*, *discapacidad* y *minusvalía*, sino que se utilizan términos neutrales como *función*, *actividad* y *participación*. Se establece una graduación positiva o negativa de los diferentes estadios jerárquicos de una enfermedad: en el órgano (función), en el individuo (actividad) y en la sociedad (participación).

Tradicionalmente se ha asociado el estado de salud del paciente solo a aquellas medidas objetivas obtenidas por el médico mediante la anamnesis, la exploración física y las pruebas complementarias (medidas anatómicas, bioquímicas y fisiológicas de los individuos) obviando todas las medidas subjetivas. La evolución del concepto de salud, ampliando sus límites desde la sola preservación del bienestar biológico a una definición que incluye el bienestar psíquico y social, ha dado lugar a que la evaluación de la salud no esté limitada a factores clínicos tradicionales basados en variables puramente biológicas.

Por otra parte, el aumento de la prevalencia de enfermedades crónicas y degenerativas en la mayoría de los países ha hecho que las expectativas terapéuticas varíen de forma considerable: el objetivo del tratamiento es atenuar o eliminar síntomas, evitar complicaciones y mejorar el bienestar de las personas dentro de los límites impuestos por la enfermedad por lo que las medidas clásicas de resultados en medicina (mortalidad, morbilidad, expectativa de vida) no son suficientes para evaluar la CV. Todo ello refuerza la necesidad de asimilar que para medir la salud no solo se deben utilizar índices que establezcan la presencia o severidad de una patología (estado físico) sino que es necesario valorar las percepciones del paciente sobre la forma en que la enfermedad y su tratamiento afectarán diversos aspectos de su vida, especialmente su bienestar físico, emocional y social.

En este contexto surge el concepto de CVRS que se nutre de los tres anteriores (salud, estado de salud y calidad de vida) y que agrupa tanto los elementos que forman parte del individuo como aquellos que, externos a éste, interaccionan con él y pueden llegar a cambiar su estado de salud⁶⁸.

Aunque son muchas las definiciones dadas y no existe una generalmente aceptada y utilizada, podemos definir la CVRS como el nivel de bienestar derivado de la evaluación que la persona realiza de diversos dominios de su vida, considerando el impacto que en estos tiene su estado de salud (Tabla 8).

AUTOR(ES)	DEFINICIÓN
Shumaker& Naughton ⁶⁹	<i>Evaluación subjetiva de la influencia del estado de salud actual, los cuidados sanitarios y la promoción de la salud, sobre la capacidad del individuo para lograr y mantener un nivel de funcionamiento global que permita seguir aquellas actividades que son importantes para el individuo y que afectan a su estado general de bienestar.</i>
Patrick & Erickson ⁷⁰	<i>Medida en que se modifica el valor asignado a la duración de la vida en función de la percepción de limitaciones físicas, psicológicas, sociales y de disminución de oportunidades a causa de la enfermedad, sus secuelas, el tratamiento y/o las políticas de salud.</i>
Bulpit ⁷¹	<i>Grado subjetivo de bienestar atribuible o asociado a la carencia de síntomas, el estado psicológico y las actividades que se desea realizar</i>
Bowling ⁷²	<i>Efectos físicos, sociales y mentales de la enfermedad en la vida diaria y el impacto de estos efectos en los niveles de bienestar subjetivo, satisfacción y autoestima.</i>
Wu ⁷³	<i>Aspectos de la salud que pueden ser directamente vividos y relatados por los pacientes</i>

Tabla 8. Definiciones de CVRS.

A pesar de que con frecuencia la CVRS es empleada indistintamente como estado de salud o CV, la gran mayoría de autores considera que deben ser diferenciadas debido a que el término CV se refiere a la evaluación de la satisfacción global de todos los aspectos de nuestras vidas, es decir, del bienestar subjetivo general mientras que la CVRS abarca sólo aquellos aspectos que están dominados o influenciados de modo significativo por la salud personal.

El concepto de CVRS esencialmente incorpora la **percepción del paciente**, como una necesidad en la evaluación de resultados en salud, debiendo para ello desarrollar los instrumentos necesarios para que esa medida sea válida, confiable y aporte evidencia empírica con base científica al proceso de toma de decisiones en salud (Testa, 1996) ⁷⁴.

La CVRS es un concepto construido a partir de múltiples facetas o *dimensiones* de la vida y la situación del paciente. Estas dimensiones se encuentran normalmente relacionadas entre sí en mayor o menor medida, pero miden aspectos diferentes de la vida y la autonomía del paciente (Figura 16). Lawton (2001)⁷⁵ sugiere la existencia de cuatro categorías en las que se engloban muchos otros dominios específicos:

1. **Calidad de vida física.** Es el dominio más ligado a la biología: dolor, síntomas, limitaciones funcionales, etc. Aparecen en casi todas las listas de dimensiones físicas de la CV.
 - a. *Funcionamiento físico:* engloba aquellos aspectos relacionados con la salud y el bienestar físico y con la repercusión de la sintomatología clínica sobre la salud. Se busca evaluar la incomodidad que la sintomatología produce en la realización de actividades físicas de la vida diaria, desplazamiento y cuidado personal, incluyendo la repercusión de las deficiencias de la visión, la audición, el habla y de los trastornos del sueño, así como de la motilidad fina (destreza), la motilidad gruesa (movilidad) y la autonomía.
 - b. *Síntomas (dolor):* Evalúa la sensación subjetiva de funcionalismo anormal, p. ej. el nivel de dolor percibido asociado a la presencia de cualquier enfermedad o sintomatología y la interferencia del dolor con la vida cotidiana.

2. **Calidad de vida social.** Incluye indicadores relativamente objetivos de participación con el mundo externo. El nivel óptimo varía claramente según los individuos por lo que alcanzar “el máximo” no es necesariamente lo mejor para todos. Las medidas incluyen tamaño de la red social, frecuencia de contactos, participación en actividades y espacio social.
 - a. *Funcionamiento social:* Evalúa la repercusión del estado de salud sobre el desempeño habitual de las relaciones sociales con la familia y amigos, el aislamiento social debido a incapacidad física y las alteraciones del desempeño de roles sociales en la vida familiar y laboral.

3. **Calidad de vida percibida.** Generalmente representa el análogo subjetivo de la calidad de vida social, la calidad familiar, de los amigos, del tiempo y la seguridad económica.
 - a. *Percepción general de la salud:* Incluye evaluaciones subjetivas globales del estado de salud de la persona y de las creencias relativas a la salud. Esta dimensión refleja las preferencias, los valores, las necesidades y las actitudes en relación con la salud.

4. **Calidad de vida psicológica.** Se compone de los afectos posibles y de los síntomas disfóricos y necesidades personales que tienen un efecto más generalizado en la calidad de vida global.

- a. *Bienestar psicológico*: Recoge la repercusión del funcionamiento cognitivo; la capacidad para razonar, concentrarse, evocar recuerdos a corto y largo plazo o pensar con claridad son conceptos típicos de esta dimensión. También recoge la vitalidad o energía y la competencia percibida para afrontar problemas derivados de la enfermedad o el tratamiento.
- b. *Estado emocional*: Suele englobar evaluaciones del afecto, la depresión y la ansiedad, es decir, de los componentes de tipo emocional del bienestar psicológico.

Otras dimensiones: Otras áreas particulares de la CVRS exploradas por algunos instrumentos son: la función sexual, el grado de satisfacción con la vida, el impacto sobre la productividad laboral y las actividades de la vida diaria.

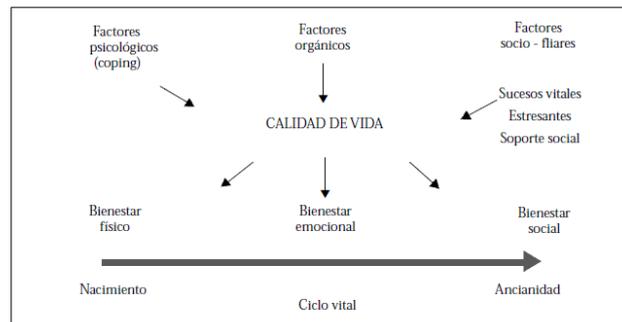


Figura 16. Factores determinantes de la CV.

2. 2. 3. Medición de Calidad de Vida Relacionada con la Salud

La CVRS se evalúa mediante cuestionarios diseñados específicamente para ello y que reflejan el punto de vista del paciente. Estos instrumentos suelen estar formados por preguntas cerradas adaptadas al idioma y la cultura del paciente evaluado y deben de disponer de propiedades métricas demostradas.

Los primeros intentos de medir el estado funcional se inician en la década de los cuarenta: Karnofsky y Burchenal⁷⁶ desarrollan el índice que lleva su nombre, ideado para valorar la capacidad funcional de los pacientes con cáncer de vejiga como medida de la utilidad del paciente y de la carga que representa para su familia o la sociedad. En los años cincuenta se desarrollan las escalas de medición de las Actividades de Vida Diaria (AVD) en las que la percepción del propio paciente sobre la salud no tiene protagonismo sino que es

enjuiciada por el profesional sanitario anteponiendo la observación más objetiva a la más subjetiva.

El cambio hacia la medida de la CVRS se da en los años setenta cuando se desarrolla la moderna generación de instrumentos genéricos de medición de la CVRS. Los cuestionarios contienen expresiones obtenidas de los pacientes, son rellenados por ellos mismos, incluyen una gran gama de dimensiones de la CVRS y demuestran unas propiedades psicométricas poco o nada estudiadas en los cuestionarios anteriores. Los principales cuestionarios realizados en esta época son el *Sickness Impact Profile* y el *Nottingham Health Profile (NHP)*, que permiten acercarse a la salud percibida por los individuos de una manera estandarizada y multidimensional.

En la década de los ochenta se desarrollan cuestionarios mucho más cortos, lo que permite su adopción definitiva en la práctica médica, como el *The Duke Health Profile* o los derivados del *Medical Outcomes Study*. Finalmente, en la década de los noventa se ha asistido al desarrollo de instrumentos específicos, es decir, a cuestionarios que incluyen solo las dimensiones específicas o características de una determinada enfermedad (p.ej. migraña) o población (p. ej. ancianos).

Los instrumentos de evaluación de CVRS deben combinar características que le den sustento conceptual, confiabilidad y validez (que midan lo que realmente dicen medir) pero es fundamental además que sean relevantes culturalmente, es decir, que pregunten sobre las cosas que realmente le importan a las personas en un lugar determinado y en un momento histórico dado.

Según Donovan y cols⁷⁷ las características que definen a un buen instrumento de medida de la CVRS son:

- a. adecuado al problema de salud que pretende medir.
- b. preciso, es decir, con un mínimo error de medida.
- c. sensible, o sea, capaz de detectar cambios tanto entre individuos como en la respuesta de un mismo individuo a lo largo del tiempo.
- d. basado en datos generados por los propios pacientes.
- e. aceptable por los pacientes, profesionales sanitarios y por los investigadores.

- f. fiable y válido, en el sentido de ser capaz de medir aquellas características que se pretenden medir y no otras. La fiabilidad test-retest debe ser alta.

Aunque existen distintos criterios para clasificar los instrumentos de medida de la CVRS, la clasificación más aceptada es la propuesta por Guyatt y cols⁷⁸. Según estos autores, los instrumentos de medida de la CVRS se dividen en instrumentos genéricos y específicos.

Los **cuestionarios genéricos** (perfiles de salud o cuestionarios tradicionales de CV) son instrumentos que miden la CVRS asociada a cualquier tipo de patología o población, independientemente del diagnóstico, por lo que pueden ser aplicables tanto a individuos sanos como a enfermos. Permiten comparar estados de salud entre diferentes sujetos o enfermedades y, como incorporan diversas dimensiones, pueden captar estados de salud variados e identificar las áreas de CV que más afecten a un individuo en particular. El inconveniente de estos instrumentos es que poseen poca sensibilidad para identificar pequeños cambios en el estado de salud de una dolencia en particular por lo que, generalmente, no permiten detectar con precisión el efecto de una intervención sanitaria sobre la CVRS asociada a una enfermedad concreta.

Entre los perfiles de salud más utilizados en nuestro contexto por su extensa validación y fiabilidad se encuentran el Cuestionario de Salud *SF-36*^{79,80} y su versión abreviada el *SF-12*⁸¹, el *EuroQol-5D*^{82,83} y el *Nottingham Health Profile (NHP)*^{84,85}. Todos ellos son multidimensionales y proporcionan puntuaciones globales y por dimensiones, lo que es muy útil a la hora de comparar diferentes poblaciones o enfermedades.

Los **cuestionarios específicos** se utilizan para evaluar la CV asociada a enfermedades o dolencias concretas (obesidad, otitis media, asma, diabetes, SIDA, etc.) o a ciertos grupos de individuos (niños, ancianos, drogodependientes, etc.). Son herramientas que exploran la CVRS asociada a enfermedades o procesos específicos, por lo que sólo son útiles para una patología particular y únicamente permiten comparar poblaciones con esa patología. Sin embargo, poseen una elevada sensibilidad ya que permiten diferenciar grupos de pacientes con la misma afección pero diferente estado de salud así como medir el impacto que puede producir en la CVRS una intervención terapéutica sobre la patología en cuestión. No tienen, por tanto, la amplitud de los instrumentos genéricos, pero sí pueden ser más sensibles a aspectos de la CV determinados por efectos de una enfermedad concreta. Algunos cuestionarios específicos

adaptados al castellano y de uso frecuente son el IPSS (hiperplasia prostática benigna), el WOMAC (artrosis), el DRHS (dispepsia), el Saint George Respiratory Questionnaire (enfermedades respiratorias) o el Medical Outcomes Study-HIV (VIH).

Los cuestionarios específicos de CVRS no son instrumentos diagnósticos dado que, aunque incluyen inventarios de síntomas, el interés no se centra en la frecuencia o magnitud de los síntomas, sino en la repercusión de los síntomas sobre la disminución del bienestar. Existen instrumentos unidimensionales que exploran una única dimensión de la CVRS como, por ejemplo, el WOMAC para la artrosis (que explora la función física) o el DRHS que explora la dispepsia asociada a la medicación. Otros por el contrario, aun siendo específicos, son multidimensionales como el Cuestionario de CV de la Diabetes.

2. 2. 4. Calidad de Vida Relacionada con la Salud Infantil.

El estudio de la CVRS infantil (CVRSI) comienza en la misma época que los estudios en adultos aunque en menor proporción (aproximadamente el 13% de las publicaciones encontradas sobre CV hacen referencia a la población infantil). A pesar de la existencia de estudios sobre CVRSI desde los años 80⁸⁶⁻⁸⁸, tradicionalmente la mayoría de las investigaciones se han centrado en el desarrollo y aplicación del concepto e instrumentos de medida en los adultos. Verdugo y Sabeh⁸⁹ en una revisión sistemática de la literatura en el periodo de 1985 a 1999 concluyen que la mayoría de artículos centrados en la infancia mencionan superficialmente el concepto o evalúan solamente algunas dimensiones o indicadores relacionados como la competencia social, el estrés o las competencias cognitivas. Sin embargo, solo a partir de los últimos años de la década de 1990 ha comenzado a estudiarse la CVRSI como concepto holístico y multidimensional junto a la evaluación del nivel de satisfacción o bienestar del niño desde su propio punto de vista. Por ello todavía no se han desarrollado modelos conceptuales sólidos, concluyentes, bien estructurados y fundamentados.

El concepto de salud en la población infantil difiere en algunos aspectos del concepto de salud para adultos en el sentido de que debe considerar la habilidad para participar y realizar plenamente funciones y actividades físicas, sociales y psicológicas apropiadas para cada edad. Las diferentes etapas del desarrollo se caracterizan por determinados rasgos y capacidades, cada una incluye a las anteriores y se alcanza a una determinada edad más o menos similar en

todos los sujetos normales. Las diferencias individuales en los recursos biológicos y emocionales posibilitan al niño interpretar los procesos de salud-enfermedad de una manera más o menos adaptativa que otros de su misma edad, pudiendo propiciar o no retrocesos en su mismo desarrollo evolutivo⁹⁰.

En el caso de los niños/as y adolescentes, las dimensiones que generalmente se tienen en cuenta están relacionadas con su capacidad para realizar actividades diarias (movilidad y cuidado personal), las adquisiciones cognitivas (memoria, habilidad para concentrarse y aprender), las emociones (positivas y negativas), la percepción de sí mismo y las relaciones tanto interpersonales (con los amigos y familiares) como con el medio que los rodea (cohesión familiar, apoyo social)⁹¹.

Por todo ello, actualmente existe un relativo consenso en destacar la importancia de no trasladar la visión del adulto a la del niño, pues éste tiene su propia percepción de los eventos vitales que no necesariamente coincide con la del adulto. Sin embargo, como señalan Bullinger y cols, cuando nos referimos a CVRS tenemos que considerar un concepto multidimensional a partir de la percepción del propio niño, de su familia (padres) y otras personas de su entorno⁹². Los estudios que evalúan la CV infantil (CVI) permiten verificar en qué medida se corresponden las percepciones de los padres a la de los niños. La existencia de diferencias entre padres e hijos puede estar reflejando desacuerdos de perspectivas o falta de comprensión de uno de los padres sobre la vida de su hijo. Por otro lado, algunos niños debido a su poca edad o a problemas de salud y de desarrollo cognitivo pueden no reunir los requisitos para completar cuestionarios de CV o no proporcionar informaciones comprensibles además de existir un nivel de dependencia que hace necesario que sean las personas responsables de la familia quienes decidan cuándo buscar ayuda en el sistema sanitario. Por estas razones, es recomendable recoger de forma paralela la percepción de CV del niño así como la que tienen las personas responsables del menor⁹³ en estudios que evalúen los resultados de salud en poblaciones pediátricas.

Por lo tanto la CVI puede definirse entonces como “la percepción del bienestar físico, psicológico y social del niño o adolescente dentro de un contexto cultural específico de acuerdo a su desarrollo evolutivo y a sus diferencias individuales”, mientras que la CVRSI sería la valoración que hace el niño o adolescente –de acuerdo a su desarrollo evolutivo,

diferencias individuales y contexto cultural- de su funcionamiento físico, psicológico y social cuando éste se ha visto limitado o alterado por una enfermedad o accidente⁹⁰.

Las investigaciones más numerosas e importantes sobre CVRSI se han centrado en el contexto de enfermedades crónicas o graves como asma, fibrosis quística, diabetes, cáncer o SIDA⁹⁴. Los estudios sobre CV en contextos escolares son muy limitados y aún menor en niños con necesidades educativas especiales debido en parte a la complejidad del tema.

Según Eiser y cols⁹⁵ las principales dimensiones de la CVRSI consideradas por los profesionales de salud e investigadores son: estatus funcional, funcionamiento psicológico y funcionamiento social (Figura 17). El estatus funcional se refiere a la habilidad del niño para desempeñar actividades diarias apropiadas de su edad y está íntimamente relacionado con la sintomatología física. El funcionamiento psicológico incluye la evaluación del estado afectivo del paciente, mientras que el funcionamiento social se asocia con la habilidad del niño para mantener relaciones con su familia y amigos.

Las dimensiones relacionadas con el aspecto social recogen la forma en que el sujeto interactúa con el medio: colegio, amigos (relaciones con los pares, rechazo por los pares), familia (comunicación familiar). Por otro lado analizan cómo repercute el estado de salud-enfermedad en el contexto en que se desarrolla el individuo: apoyo social, impacto en el tiempo de los padres, en la cohesión familiar y en las actividades familiares.

Como aspectos psicológicos, los cuestionarios recogen información sobre los sentimientos y las emociones positivas/negativas; la depresión, el sufrimiento, la ansiedad y el estado de ánimo; la percepción de sí mismo, la autoestima y la apariencia física; la satisfacción con la vida; las adquisiciones cognitivas, la habilidad para concentrarse, aprender y utilizar la memoria; y por último, las conductas en general o de riesgos en especial.

Con respecto al aspecto físico, se evalúa la capacidad para realizar las actividades físicas diarias; desplazamiento, destreza, deambulación y el cuidado personal; los síntomas, como el dolor y el malestar; los sentimientos relacionados con la percepción subjetiva de la salud física y las sensaciones físicas; la energía y la vitalidad; así como la percepción general de la salud⁹¹.

Las diferentes dimensiones de la CVRSI están influenciadas por otras variables como el contexto cultural, el desarrollo evolutivo y las diferencias individuales; es decir, la percepción de bienestar objetivo o subjetivo del niño o adolescente sobre su salud mental y física está influida por el contexto cultural al cual pertenece y en el que se ha desarrollado. El niño se comporta y actúa conforme a patrones propios de su medio, donde la familia desempeña un papel significativo como primer agente socializador⁹⁰.

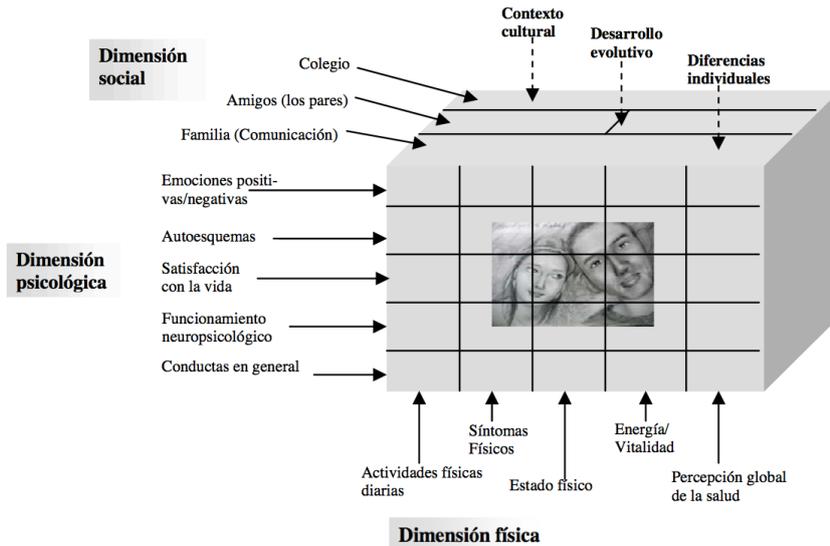


Figura 17. Dimensiones de la CVRSI.

Las posibilidades de aplicación de los estudios sobre CVI son varias. Eiser, Mohay y Morse⁹⁶ han destacado la importancia de su evaluación en contextos médicos que puedan provocar problemas en la vida diaria del niño. Wallander, Schmitt y Koot⁹⁷ subrayan, además, las siguientes aplicaciones: informes de políticas públicas para toma de decisiones, distribución de recursos públicos, evaluación de los efectos de políticas, programas o servicios implementados, evaluación de los efectos de intervenciones clínicas y tratamientos específicos, determinación de las diferencias en calidad de vida en distintos grupos de niños, determinación de relaciones entre CVI y otros factores de pronóstico y estudios prospectivos.

Según Landgraf y cols⁹⁸ los instrumentos para evaluar la CV de niños y adolescentes tienen tres aspectos fundamentales: (a) la especificidad del instrumento (si es para una enfermedad específica o de uso general), (b) la modalidad del instrumento (si es de autoinforme o si son necesarios entrevistadores entrenados para aplicarlo), y (c) la identificación de la persona que responde al cuestionario (si el instrumento debe ser contestado por el propio niño, o debe ser cumplimentado por los padres u otras personas).

De acuerdo con estos aspectos, la investigación y el desarrollo de cuestionarios en niños presenta dos problemas principales: la variabilidad según la edad y el problema de la persona a responder el cuestionario.

En primer lugar, muchos de los cuestionarios existentes y de los sistemas de puntuación empleados para los adultos no son aplicables a niños porque contienen dominios tales como la fertilidad, la sexualidad y la independencia económica; incluso dominios tales como la independencia en la vida diaria (uso de aseo, vestirse, etc.) pueden ser inadecuados para los niños muy pequeños. Por ello y para solucionar este problema, los instrumentos de medida de la CVRS en niños deben ser desarrollados por separado para diferentes grupos de edad, pudiendo diferir considerablemente unos de otros.

En segundo lugar, la persona a responder el cuestionario constituye un punto de cierto controversia a la hora de elegir cuestionarios para niños. Los cuestionarios respondidos por el propio sujeto son considerados como el principal método de evaluación de CVRS⁹⁹. Sin embargo, su uso con los niños es problemático ya que puede cuestionarse la relevancia, la fiabilidad y la validez de su medida: el predominio de la memoria a corto plazo, la preponderancia de los sucesos recientes, la ausencia de una visión con perspectiva a largo plazo, la carencia de habilidades cognitivas y de lenguaje completamente desarrolladas para interpretar las preguntas puede llevar a resultados no válidos y poco fiables¹⁰⁰. El uso de cuestionarios habituales plantea un problema adicional como resultado del insuficiente desarrollo de habilidades para la lectura.

A pesar de todas las dificultades no se puede evitar medir la evaluación de los niños sobre su propia salud si uno quiere medir CVRS en niños. En la literatura científica está contrastado que la información proporcionada por los padres, cuidadores o tutores no es equivalente a lo proporcionada por el paciente: se ha documentado de forma consistente la gran variabilidad y falta de concordancia en la medición de la CVRS tanto de niños con enfermedades crónicas como de niños sanos¹⁰¹. Los padres pueden fácilmente sobre o subestimar la importancia que su hijo atribuye a ciertos aspectos de su bienestar en un momento concreto de su vida; así, cuestiones relacionadas con las relaciones sociales pueden ser mucho más importantes para un adolescente que lo que los padres han pensado alguna vez.

Sin embargo, no existe ninguna duda de que la opinión de los padres es de gran importancia: incluso cuando el niño sea capaz de completar un cuestionario, el empleo de cuestionarios respondidos por los padres debe considerarse como una medida complementaria en ensayos clínicos pediátricos por el papel fundamental que tienen en la toma de decisiones clínicas y en el cumplimiento de regímenes de tratamiento domiciliarios en enfermedades crónicas pediátricas¹⁰². Por estas razones, se recomienda el empleo de cuestionarios con versiones desarrolladas para padres e hijos que midan las mismas dimensiones con ítems similares para poder realizar comparaciones entre las dos perspectivas en estudios realizados para evaluar la CVRS en las poblaciones infantiles¹⁰³.

Como resumen de estos aspectos, la FDA (Agencia de Alimentos y Medicamentos de los Estados Unidos) ha publicado unas directrices en las que describe la importancia de los resultados percibidos por los paciente como indicadores de eficacia en ensayos clínicos, incluyendo aquellos para pacientes pediátricos¹⁰⁴. Asimismo recomiendan que los instrumentos desarrollados y validados para niños y adolescentes deben realizarse para rangos de edad pequeños y de manera que puedan compararse las respuestas entre las distintas categorías de edad de forma fiable y válida.

Al igual que en el caso de los adultos, los instrumentos o cuestionarios de CVRS en niños/as y adolescentes suelen clasificarse en genéricos y específicos según las características de la población para la cual han sido creados. Tanto unos como otros intentan recoger la percepción de la salud de los propios niños (desde la edad pre-escolar o escolar hasta los 11-12 años) y de los adolescentes (desde los 12-13 hasta los 18-19 años).

En las últimas dos décadas, diferentes investigadores han desarrollado instrumentos genéricos y específicos para medir la CVI en diferentes poblaciones. En la literatura científica se pueden identificar varias revisiones sobre los instrumentos de medida de CVRSI para la población infantil y adolescente. Eiser y Morse¹⁰⁵ verificaron la existencia de 43 instrumentos de medida de CVRSI, 19 genéricos y 24 específicos para algún tipo o grupo de enfermedad (asma, cáncer, epilepsia, etc.), disponibles en lengua inglesa. Solans y cols¹⁰⁶ en una actualización más reciente de las medidas de CVRSI identificaron en total 30 instrumentos genéricos y 64 específicos, 51 de los cuales han sido publicados entre 2001 y 2006.

Grange y cols. en 2007 analizaron los instrumentos genéricos de medida de CVRS existentes específicamente para menores de 5 años (edad preescolar) al considerarlos un grupo de características concretas por sus limitaciones de comunicación, de tal forma que identificaron 16 instrumentos de los cuales solo 6 habían sido desarrollados para ser completados por los niños¹⁰⁷.

En cuanto a instrumentos de medida existentes en castellano, Pane y cols.⁹¹ identificaron 17 instrumentos con aceptables resultados de fiabilidad (8 genéricos y 9 específicos) para medir CVRSI, de los cuales 3 creados en España, 2 desarrollados simultáneamente con otros países y 12 adaptados de versiones originales extranjeras (Figura 18).

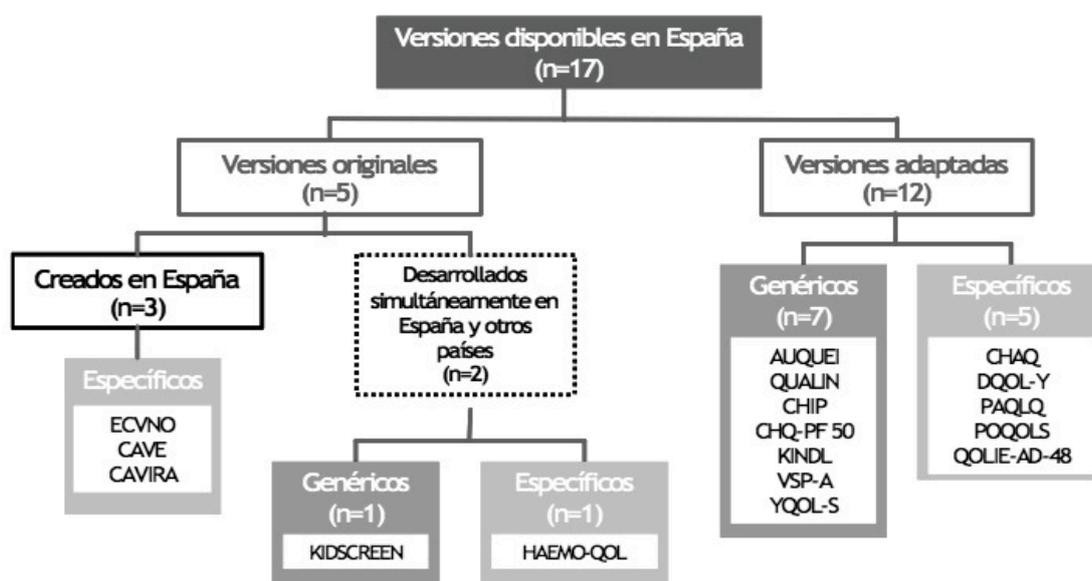


Figura 18. Cuestionarios de CVRSI (modificado de Pane y cols⁹¹).

Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQLTM)

El PedsQL, desarrollado originalmente en inglés por Varni y cols¹⁰⁸ es un instrumento genérico de evaluación de CV pediátrica que cuenta además con módulos específicos para varias enfermedades crónicas tales como asma, diabetes, artritis o enfermedades cardiacas. Está dirigido tanto a niños portadores de enfermedades crónicas como a niños sanos. La versión española del PedsQL, realizada por González-Gil y cols¹⁰⁹ se obtuvo mediante la adaptación transcultural al castellano y se ha comprobado su validez de constructo, su fiabilidad y sensibilidad a los cambios.

Child Health and Illness Profile (CHIP)

El perfil de salud infantil y de adolescentes CHIP es un instrumento genérico que mide el estado de salud de niños/as y adolescentes de 6-18 años desarrollado en Estados Unidos. Es el primer instrumento de salud autopercebida basado en un concepto holístico y multidimensional de salud publicado en la literatura médica. Inicialmente se desarrolló la versión para adolescentes (CHIP-AE) y posteriormente la versión infantil (CHIP-CE)¹¹⁰⁻¹¹².

KIDSCREEN

Los instrumentos KIDSCREEN son una familia de instrumentos genéricos de CVRS que han sido diseñados y validados para niños y adolescentes sanos y con enfermedades crónicas con edades entre 8 y 18 años. El proyecto multicéntrico internacional *KIDSCREEN Screening for and Promotion of Health Related Quality of Life in Children and Adolescents*¹¹³ tiene como finalidad crear un cuestionario desarrollado transculturalmente, es decir, de forma simultánea en varios países, para su uso en la población infantil y adolescente de Europa. Existen tres versiones disponibles para los niños y adolescentes, así como sus correspondientes versiones para padres/tutores: *KIDSCREEN-52* (versión extensa) que cubre 10 dimensiones de CVRS, *KIDSCREEN-27* (versión reducida) que cubre 5 dimensiones de CVRS y el *KIDSCREEN-10* como puntuación global de CVRS. La versión española del *KIDSCREEN-52*¹¹⁴, única para niños y adolescentes, contiene 52 ítems y 10 dimensiones.

KINDL

El cuestionario KINDL es un instrumento genérico de CVRS para niños/as y adolescentes desarrollado en Alemania¹¹⁵ para ser utilizado en la práctica clínica, así como en niños sanos. La evaluación de su fiabilidad y validez ha sido aceptable, así como la sensibilidad a los cambios en pacientes pediátricos crónicos en rehabilitación. Contiene 24 preguntas distribuidas en seis dimensiones: bienestar físico, bienestar emocional, autoestima, familia, amigos y colegio. El cuestionario presenta diferentes versiones para cada grupo de edad: Kiddy-Kindl (4-7 años), Kid-Kindl (8-12 años), y Kiddo-Kindl (13-16 años). Además, incluye dos versiones para los padres de los menores de 4-7 años y de los de 8-16 años de edad. Por otra parte, el cuestionario contiene un módulo con preguntas dirigidas a niños/as y

adolescentes que padecen enfermedades crónicas y módulos específicos para niños/as y adolescentes con asma, obesidad, dermatitis atópica y diabetes.

2. 2. 5. Calidad de Vida y Salud Oral.

La salud oral forma parte de la salud general y es esencial para la CVRS. Todos los individuos deben disponer de una condición de salud oral que les permita hablar, masticar, reconocer el sabor de los alimentos, sonreír, vivir libres de dolor e incomodidad y relacionarse con otras personas sin apremio. Las enfermedades orales influyen en la CV afectando diversos aspectos como son la función masticatoria y fonoarticular, la apariencia física, las relaciones interpersonales e incluso las oportunidades de trabajo¹¹⁶.

De forma similar a la salud general, tradicionalmente la valoración de la salud oral se ha basado en criterios estrictamente clínicos. Algunos autores como Cohen o Nikias, ya en la década de los 70, sugieren la necesidad de complementar la información aportada por estos indicadores clínicos de salud oral ya que no reflejan percepciones subjetivas como el dolor, la estética o la función^{117,118}. Así surgen los indicadores sociodentales de CV oral (CVO) para evaluar el impacto físico, psicológico y social de los problemas orales y establecer la magnitud con la que las condiciones orales pueden alterar la vida diaria de una persona.

Posteriormente, en la “Declaración de Berlín para la salud oral y servicios odontológicos”¹¹⁹ de 1992 se concluye que los indicadores sociodentales pueden ser estimadores de necesidades de tratamiento más relevantes que los propios índices clínicos ya que pueden valorar dimensiones como el dolor, discomfort, función masticatoria y estética, que difícilmente pueden ser valoradas por medidas clínicas objetivas.

Según Dolan, de acuerdo con la naturaleza multidimensional de la salud formulada por la OMS en el año 1948, la definición apropiada y realista del concepto de salud oral sería “el estado de la dentición que cómoda y funcionalmente permita al individuo el desempeño de los roles sociales inherentes a su sociedad”¹²⁰.

El Departamento de Salud de los Estados Unidos en el año 2000 en su “Informe de salud bucal en América”¹²¹ establece una clasificación de enfermedad oral que incluye seis categorías principales: infecciones dentales y periodontales, trastornos de la mucosas, cáncer oral y faríngeo, trastornos del desarrollo, traumatismos y ciertas condiciones crónicas e incapacitantes, incluido el dolor orofacial. Según esta clasificación, la salud oral se define como la ausencia de enfermedad oral, es decir, no tener dolores crónicos orofaciales, cáncer oral u orofaríngeo, lesiones de tejidos blandos bucales, defectos congénitos como LL o FP ni otras enfermedades o patologías que afecten al complejo craneofacial (tejidos orales, dentales o craneofaciales).

Definir la Calidad de Vida Relacionada con la Salud Oral (CVRSO) es difícil porque se trata de un concepto abstracto, multidimensional sin demarcaciones claras de sus distintos componentes, subjetivo y personal, individualmente dinámico y en evolución dentro de los distintos grupos de población. Según el marco conceptual de la OMS se puede definir la CVRSO como: “la percepción del grado de disfrute que una persona tiene con respecto a su boca en función del servicio que en su vida diaria le reporta, teniendo en cuenta las circunstancias pasadas y presentes, su implicación en el cuidado, sus expectativas, sus paradigmas y, por supuesto, el sistema de valores que su contexto sociocultural le inspira”.

Inglehart y Bagramian, definen la CVRSO como “la evaluación individual referente a cómo una patología o desorden orofacial afecta el bienestar del sujeto en las dimensiones funcional, psicológica, social y en la experiencia del dolor/discomfort”¹²².

- *Indicadores sociodentales*

La progresiva implicación en la evaluación diagnóstica de la percepción propia de las personas sobre su estado de salud que se ha producido en las últimas tres décadas ha dado lugar al desarrollo de mediciones indirectas (indicadores) de los efectos que las enfermedades orales generan en el bienestar funcional, social y psicológico. Originalmente estos indicadores se desarrollaron con una función complementaria de los índices clínicos ya que estos sirven para medir la enfermedad pero tienen un poder limitado a la hora de explicar la salud oral, la sintomatología, la función masticatoria, el bienestar psicológico y social. Los denominados “Indicadores Sociodentales” analizan el impacto físico, psicológico y social que las diferentes condiciones y patologías orales generan en la vida diaria del individuo mediante cuestionarios

que valoran las diferentes dimensiones del bienestar que puedan verse afectadas por problemas de salud oral.

La mayoría de los cuestionarios de CVRSO se encuadran en la adaptación realizada en 1988 por Locker¹²³ de la clasificación de deficiencias, discapacidades y minusvalías de la OMS al campo odontológico (Figura 19). Sobre esta adaptación se ha podido desarrollar un marco teórico que ha favorecido la comprensión de las diferentes consecuencias que puede tener la patología oral y de cómo medir, ponderar, clasificar y jerarquizar dichos efectos. En este marco conceptual se establece una jerarquía en las distintas consecuencias de la patología oral en un sujeto.

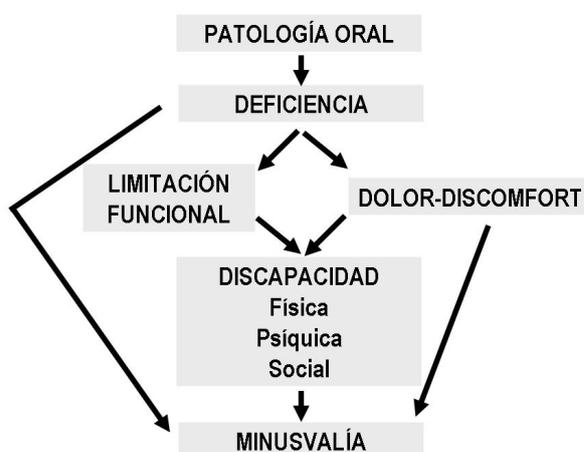


Figura 19. Marco teórico de Locker¹²³ en el que se basan los cuestionarios de CVRSO

El primer nivel está compuesto por las deficiencias orales, que serían las alteraciones anatómicas y/o funcionales del aparato estomatognático (caries, maloclusión, fisura oral, etc.). Estas alteraciones pueden o no cursar con cierto grado de limitación funcional o dolor, que sería el segundo nivel. Estas consecuencias representan el primer estadio de impacto negativo derivado de las deficiencias orales y pueden retroalimentarse ya que una limitación funcional puede causar dolor y/o discomfort. Estas percepciones subjetivamente negativas pueden o no generar impacto en el sujeto que sería el tercer nivel (Discapacidad). En este nivel el individuo percibe que por culpa del dolor o la limitación funcional se ve afectada su capacidad física, psicológica y/o social de las tareas habituales en las que la boca participa (restricción de alimentos o interrupción de comidas, baja autoestima, irritabilidad...). En esta situación se puede pasar al cuarto nivel (Minusvalía) si por culpa de esta discapacidad no puede realizar las tareas o roles que su contexto sociocultural le impone (alteración del rendimiento laboral, la satisfacción con la vida, etc.).

- *Cuestionarios de calidad de vida oral*

Los indicadores sociodentales son instrumentos compuestos por preguntas referentes a las diferentes dimensiones sobre CVRSO que hayan sido incluidas en el ámbito de estudio del cuestionario. Las principales dimensiones incluidas en la mayoría de cuestionarios son la función física, aspectos psicológicos, relaciones interpersonales y apariencia. (Tabla 9). Un trabajo reciente de Montero y cols¹²⁴ propone que la CVO está estructuralmente conformada por tres dimensiones: dolor-discomfort, limitación funcional e impacto psicosocial.

PRINCIPALES DIMENSIONES DE LOS CUESTIONARIOS DE CVRSO	
Dimensión Física <ul style="list-style-type: none"> • Masticación/ Comer • Higiene • Pronunciación/ Habla 	Dimensión Psicológica <ul style="list-style-type: none"> • Dolor • Confort/ Bienestar • Preocupación / Relajación • Estado emocional
Dimensión Interpersonal <ul style="list-style-type: none"> • Relaciones sociales • Relaciones de pareja 	Dimensión Apariencia <ul style="list-style-type: none"> • Estética / Sonrisa • Ocupación/ Laboral

Tabla 9. Dimensiones de CVRSO

Durante los últimos 20 años, se han desarrollado diferentes herramientas o instrumentos dirigidos a la evaluación de la CVRSO. Al menos 17 cuestionarios han sido elaborados para medir el impacto negativo de las enfermedades orales en adultos¹²⁵. Skaret y cols analizaron todos los instrumentos de CVRSO utilizados hasta el año 2004, reseñando que los índices más destacados, aplicados y estudiados en numerosos artículos en revistas de gran importancia mundial y que han sido considerados claves en el desarrollo de los indicadores de calidad de vida oral son el OHIP-14, el OHIP-20 y el OIDP¹²⁶.

Social Impact of Dental Disease (SIDD).

Cushing y cols.¹²⁷ en 1986 desarrollaron el primer indicador sociodental, denominado *Social Impact of Dental Disease (SIDD)*. Compuesto por 14 preguntas pertenecientes conceptualmente a 5 dimensiones: masticación, social, dolor, discomfort y estética. Aunque no se ha vuelto a utilizar, el SIDD sentó las bases científicas y operativas de las mediciones del bienestar oral y otros cuestionarios se han basado en él para mejorar su rendimiento descriptivo y analítico.

Dental Health Index (DHI).

Dolan y Gooch¹²⁸ desarrollaron en 1989 el cuestionario *Dental Health Index (DHI)*. Este breve instrumento está compuesto por 3 preguntas índices que representaban la dimensión dolor, preocupación y relaciones sociales.

Geriatric Oral Health Assessment Index (GOHAI).

Otro de los instrumentos desarrollados para evaluar la salud oral desde un punto de vista funcional es el Índice de Valoración de salud Oral en Geriatria (*Geriatric Oral Health Assessment Index o GOHAI*). Descrito por Atchison y Dolan¹²⁹ en 1990 para valorar el impacto de los problemas orales en población anciana. El GOHAI consta de 12 preguntas y evalúa tres dimensiones: función física; función psicosocial; dolor y discomfort. Posteriormente ha sido validada en edades más jóvenes por lo que ha sido renombrado por las autoras como *General Oral Health Assessment Index*.

Dental Impact on Daily Living (DIDL)

En 1995 Leão y Sheiham¹³⁰ desarrollaron el cuestionario *Dental Impact on Daily Living (DIDL)* para estudiar los impactos orales de la población adulta brasileña. Constituido por 36 ítems pertenecientes a 5 dimensiones: confort, apariencia, dolor, rendimiento social y restricción alimentaria. Está basado en el SIDD de Cushing¹²⁷ con la incorporación adicional de una escala visual que evalúa el impacto global en conjunto de todas las dimensiones.

Oral Health Impact Profile (OHIP)

Junto con el GOHAI, probablemente el más conocido de los instrumentos para evaluar CVRSO es el Perfil de Impacto de Salud Oral (*Oral Health Impact Profile u OHIP*). Slade y Spencer¹³¹ desarrollaron en Australia el cuestionario OHIP-49 para captar y estructurar los impactos orales según las pautas del marco conceptual propuesto por Locker¹²³. Una de las principales limitaciones del OHIP-49 radica en su gran extensión por lo que Slade¹³² validó el OHIP en formato corto con 14 preguntas (OHIP-14) derivadas de las 49 originales manteniendo suficiente capacidad psicométrica y discriminativa. El OHIP-14 es uno de los

instrumentos más internacionalizados al que se le ha reconocido su idoneidad para describir, discriminar y evaluar el bienestar oral.

Oral Impacts on Daily Performance (OIDP)

En 1997 Adulyanon y Sheiham¹³³ presentaron el cuestionario OIDP (*Oral Impacts on Daily Performances*) diseñado para evaluar los impactos terminales (discapacidad ó minusvalía) que las condiciones orales generan en la vida diaria de las personas. Desde el punto de vista conceptual tiene 8 dimensiones: comer, pronunciar, higiene, rol ocupacional, relaciones sociales, dormir-relax, sonreír y estado emocional, valoradas cada una por un ítem en el que se evalúa el impacto en términos de frecuencia y severidad por el propio individuo.

2. 2. 6. Calidad de Vida y Salud Oral Infantil.

La salud oral es una parte integral de la salud general del niño. Las enfermedades y trastornos orales durante la infancia pueden tener un impacto negativo en la vida de los niños que afecte a su crecimiento, peso, socialización, autoestima, capacidad de aprendizaje y también a la calidad de vida de sus padres^{134,135}.

Los problemas más prevalentes con respecto a la salud bucal en los niños son las alteraciones en el crecimiento y desarrollo bucodental y la caries.

- 1) Caries dental. Es actualmente la enfermedad crónica más frecuente en la infancia y presenta graves repercusiones en la salud general del niño. La OMS ha estimado que el 60–90% de los niños en edad escolar presentan caries. El impacto negativo de la caries dental sobre la vida de los niños incluye:
 - ✓ mayor experiencia de sensación de dolor, infecciones faciales, hospitalizaciones y visitas a urgencias.
 - ✓ dificultad para masticar, disminución del apetito, pérdida de peso, disminución del desarrollo físico, dificultad para dormir.
 - ✓ alteración en el comportamiento (irritabilidad y baja autoestima), pérdida de días de escuela y/o disminución del rendimiento escolar.
 - ✓ alto coste de tratamiento¹³⁶.
 - ✓ disminución en la calidad de vida en relación con la salud oral¹³⁷.

- 2) Maloclusión dental. Se relaciona con hábitos orales incorrectos, patrones alimentarios inadecuados y/o una adquisición tardía de la masticación, que propician el desarrollo de maloclusiones. O'Brien y cols¹³⁸ encontraron únicamente diferencias significativas entre pacientes con maloclusión y controles en las dimensiones de bienestar social y emocional, lo que sugiere que la repercusión de la maloclusión en la CVRS es fundamentalmente psicosocial más que en la propia salud oral, síntomas orales y limitaciones funcionales. Además, la dificultad para sonreír debido a la mala posición de los dientes ha sido considerada uno de los motivos de mayor impacto de la CVRSO de los niños¹³⁹.
- 3) Traumatismos dentarios. Los estudios no han encontrado impacto negativo en la CVRSO en la presencia de traumatismos leves y sí en los niños que presentaron traumas más graves¹⁴⁰. Los incisivos centrales superiores, posiblemente por su posición en la boca, tienen un mayor riesgo de verse afectados pudiendo provocar pérdida de función y problemas estéticos: la alteración de color en los dientes antero-superiores ha mostrado tener un impacto negativo en la vida de los niños, principalmente en lo que se refiere al dominio de auto-imagen y autoestima.
- 4) Otros problemas orales como los asociados a la erupción dentaria, fisuras labio-palatinas, o tinciones dentales afectan a los niños con frecuencia variable, dado que existe poca información sobre sus posibles consecuencias funcionales, emocionales y sociales.

Los instrumentos utilizados para medir CVRSO intentan medir el grado en el que los diferentes aspectos de la vida de las personas (actividades diarias, limitaciones funcionales, bienestar emocional y social, condiciones psicológicas) son afectados por las condiciones de salud oral¹⁴¹.

En la literatura existen varios instrumentos para evaluar la CVRSO de niños, divididos en cuestionarios respondidos por los propios niños y/o cuestionarios respondidos por los padres o responsables. Estos instrumentos, cuya validez y confiabilidad han sido comprobadas en varios estudios, se desarrollaron para ser aplicados en niños con diversas condiciones bucales y dentofaciales y para ser ajustados a las diferencias de desarrollo entre niños de diversas edades.

Los principales cuestionarios desarrollados para valorar la CVRSO en niños son el Early Childhood Oral Health Impact Scale, Child Oral Impacts on Daily Performances Index, Child Oral Health Quality of Life, Child Oral Health Impact Profile y Michigan OHRQoL scale (Tabla 10).

Early Childhood Oral Health Impact Scale (ECOHIS):

Desarrollado en 2007 por Talekar y cols^{135,142} en Estados Unidos para evaluar la percepción de los padres sobre el impacto provocado por patologías y trastornos orales en la CVRSO en niños en edad preescolar (2 a 5 años de edad) y sus familias. Se compone de 13 ítems distribuidos en dos dominios: una sección de impacto sobre el niño compuesta de cuatro dimensiones (síntomas – 1 ítem, función – 4 ítems, psicología – 2 ítems y autoimagen e interacción social – 2 ítems) y otra sección de impacto familiar con dos dimensiones (distress de los padres – 2 ítems y funcionamiento familiar – 2 ítems).

Child Oral Impacts on Daily Performances Index (Child-OIDP):

El C-OIDP es una adaptación del cuestionario OIDP realizada por Gherunpong y cols¹⁴³ para niños entre 11 y 14 años de Tailandia. El C-OIDP permite el análisis del impacto sobre actividad diaria provocado por determinadas condiciones orales en relación con ocho dimensiones: comer, pronunciar, higiene, rol ocupacional, relaciones sociales, dormir-relax, sonreír y estado emocional. Posteriormente la versión original del C-OIDP ha sido validada y adaptada transculturalmente para su uso en adolescentes en varios idiomas, entre ellos el inglés¹⁴⁴ y el español¹⁴⁵.

Child Oral Health Quality of Life (COHQoL)

El COHQoL es un conjunto de escalas multidimensionales desarrolladas con el objetivo de medir los efectos negativos que pueden tener los trastornos y enfermedades orales y orofaciales en el bienestar de los niños de 14 años y sus familias. Este instrumento incluye un cuestionario sobre el impacto en la familia de los problemas orales del niño y (Family Impact Scale – FIS)¹⁴⁶, un cuestionario para medir la percepción del niño de su propia salud oral (Child Perception Questionnaire – CPQ)¹⁴⁷ con tres versiones distintas para edades de 6-7

años, 8-10 años y 11-14 años y un cuestionario para medir la percepción de los padres-cuidadores del estado de salud oral del niño (Parental-Caregiver Perceptions Questionnaires” – P-CPQ)¹⁴⁸.

Child Oral Health Impact Profile (COHIP):

Broder y cols adaptaron el cuestionario OHIP para ser utilizado en niños desarrollándose así el OHIP-infantil o C-OHIP¹⁴⁹⁻¹⁵¹. La versión definitiva consta de 34 ítems y 7 dimensiones: limitación funcional, dolor, discomfort psicológico, incapacidad física, discapacidad psicológica, discapacidad social y minusvalía. Posteriormente se desarrolló la versión reducida de 14 ítems (COHIP-14). Este cuestionario está diseñado para padres e hijos y existen versiones validadas en varios idiomas, entre ellos, en español, inglés y francés con buen rendimiento.

Michigan OHRQoL scale

La escala de CVRSO de Michigan¹³⁴ fue desarrollada para examinar el efecto del tratamiento de las caries en edad preescolar en la CVRSO de los niños. Diseñada para su uso en niños entre 22 y 70 meses, permite obtener información tanto del propio niño (limitado a edades entre 36-70 meses) como de los padres. Está compuesta de 14 ítems que evalúan 4 dominios independientes: limitación funcional, dolor/discomfort, aspectos psicológicos y discapacidad social. En la siguiente Tabla 10 se comparan los principales cuestionarios de CVRSO infantil.

AUTOR	AÑO	INSTRUMENTO	DIRIGIDO	Nº ÍTEMS	DOMINIOS
Jokovic y cols ¹⁴⁶	2002	COHQoL CPQ (6-7) CPQ (8-10) CPQ (11-14) P-CPQ	Niños Padres	37 (version de 8 y 16)	Síntomas orales, limitación funcional, limitación emocional, Bienestar social.
Talekar y cols ¹³⁵	2004	ECOHIS	Padres	13	Condiciones funcionales, psicológicas y sociales
Gherunpong y cols ¹⁴³	2004	C-OIDP	Niños	8	Actividades diarias relacionadas con funcionamiento físico, psíquico y social
Broder y cols ¹⁴⁹	2005	COHIP	Padres Niños	34 (versión de 14)	Síntomas orales, bienestar funcional, emocional y social, autoestima y expectativas relacionadas con la salud oral
Filstrup y cols ¹³⁴	2005	MOHQoL	Padres Niños	14	Limitación funcional, dolor/discomfort, aspectos psicológicos y discapacidad social

Tabla 10. Principales cuestionarios de CVRSO infantil.

2. 3. FISURA LABIO-PALATINA Y CALIDAD DE VIDA

La FL/P es la anomalía congénita cráneo-facial más común. Los niños nacidos con FLP pueden verse afectados por una combinación de alteraciones y problemas tales como diferencias faciales, trastornos de la deglución, del habla y diversas alteraciones de la dentición y crecimiento maxilofacial. El conjunto de alteraciones faciales y funcionales presentes en los niños con FL/P pueden repercutir en su desarrollo psicosocial, afectando las interacciones sociales y familiares.

2. 3. 1. Alimentación

La existencia de dificultades en la alimentación en pacientes con FL/P fueron ya establecidas en 1619 por Fabricio de Aquapendente (citado por Jones¹⁵²). Observó que los recién nacidos con LL y FP no podían succionar correctamente y a menudo morían de desnutrición. Las primeras publicaciones científicas sobre la naturaleza de los problemas de alimentación fueron realizadas por Zickefoose¹⁵³ (1957) y Tisza¹⁵⁴ (1962).

Los patrones de deglución y alimentación del niño fisurado están invariablemente alterados. La severidad de los problemas de alimentación varía mucho dependiendo de que la fisura sea del labio y/o paladar, unilateral o bilateral y completa o incompleta. Los problemas de alimentación característicamente identificados en los pacientes fisurados incluyen la dificultad para la succión oral, ingesta insuficiente de volumen, largos tiempos de alimentación, regurgitación nasal, toma de aire excesiva y tos o asfixia.

Los niños con LL generalmente no tienen problemas significativos con la alimentación, especialmente si la afectación es unilateral. Los bebés con pequeñas fisuras del paladar blando a menudo son capaces de alimentarse sin modificaciones o requerimientos especiales debido a que pueden ocluir la fisura con la lengua durante parte del movimiento de succión para que la presión negativa pueda obtenerse normalmente.

Los niños con una fisura tanto del paladar duro como del blando tienen una mayor dificultad para la alimentación por varias razones: incapacidad para encontrar una superficie palatina dura, imposibilitando la compresión del pezón; incapacidad de succionar debido a que el libre flujo de aire a través de la fisura hacia la nariz impide crear suficiente presión negativa para la succión de la leche de tal manera los esfuerzos por realizar esta acción pueden originar

en algún momento regurgitación nasal de alimento. Esto puede causar malestar y desorganización en cuanto a la coordinación de la respiración y alimentación. Además es fácil que los niños fisurados traguen más aire de lo habitual con la ingestión lo que favorece la regurgitación y la aparición de cólicos. Un niño con fisura puede requerir mucho más tiempo para realizar la toma sin llegar a ingerir suficiente alimento para estar satisfechos. Para complicar este problema, el niño realiza un gasto mayor de calorías durante el proceso de alimentación que el niño promedio. Todo esto conduce a que la ganancia de peso por parte del niño sea menor.

La alimentación del niño fisurado genera también una gran preocupación para los padres. Normalmente, el proceso de alimentación sirve como vínculo entre el cuidador y el niño. Sin embargo, alimentar a un bebé con paladar fisurado puede generar una gran frustración. La combinación de unos padres mejor educados y un mayor acceso a la información médica ha aumentado la concienciación sobre los potenciales problemas de alimentación de los niños fisurados. Young y cols¹⁵⁵ estudiaron la información que los padres de niños con FL/P consideraban más importante para ellos, destacando que los problemas de alimentación eran un tema que consideraban "crítico", con énfasis en las dificultades de la alimentación con biberón y el aprendizaje sobre biberones especiales y alimentadores disponibles para sus hijos.

En la mayoría de protocolos de tratamiento de FL/P la cirugía de corrección del labio y del paladar se realiza durante el primer año con lo que la mayoría de problemas con la alimentación se solucionan o reducen en poco tiempo, pudiendo realizar una alimentación normal¹⁵⁶.

2. 3. 2. Audición

Una correcta anatomía y fisiología de la trompa de Eustaquio y de las estructuras adyacentes constituye una condición imprescindible para el normal funcionamiento del oído medio. En circunstancias normales, los músculos tensor del velo del paladar y elevador del velo del paladar abren la trompa de Eustaquio con cada gesto de deglución. En la infancia el drenaje del oído medio en la nasofaringe está dificultado adicionalmente por una desfavorable posición horizontal de la trompa de Eustaquio que varía con la edad y con el desarrollo de la base del cráneo. El funcionamiento de la trompa mejora con el crecimiento siendo

habitualmente a los 5-6 años la edad crítica en la que la presión del oído medio se normaliza en los niños sanos.

Los pacientes con fisura del paladar presentan un mayor riesgo de disfunciones crónicas de la trompa de Eustaquio debido a que las alteraciones en la inserción y el funcionamiento de la musculatura del paladar, la distensibilidad disminuida de la trompa y las alteraciones del esqueleto craneofacial dan lugar a una obstrucción funcional y a una insuficiente apertura de la trompa con la consecuente presión negativa del oído medio¹⁵⁷. Ésta disfunción crónica conduce a la aparición de otitis media exudativa o con efusión (OME), patología de la membrana timpánica (retracciones, perforaciones, colesteatoma) y finalmente pérdida audición¹⁵⁸.

La OME, definida como presencia de líquido en el oído medio sin signos de infección, es una patología de alta prevalencia en pacientes portadores de fisura del paladar, con cifras estimadas sobre el 90%, incluso tras la reparación quirúrgica de la fisura¹⁵⁹. En pacientes con FP la aparición de colesteatomas y las perforaciones de la membrana timpánica han sido reportadas en un rango de 1% a 15,5% y 4% a 32,6% respectivamente^{160,161}.

Tras el cierre quirúrgico de la fisura no se logra una función muscular completamente normal por lo que la disfunción tubárica y por consecuencia la OME tienden a persistir en el tiempo, con una baja tasa de resolución espontánea¹⁶². Aunque la OME conlleva una hipoacusia de conducción en general de grado leve a moderado, debido a que esta disminución de la percepción auditiva se presenta en un período crítico de la adquisición de las habilidades de lenguaje, habla y aprendizaje, existe una razonable preocupación en cuanto al desarrollo de estos niños¹⁶³.

En esta disyuntiva han surgido dos corrientes de tratamiento de la OME. Una quirúrgica, que busca evitar la hipoacusia de conducción y las eventuales complicaciones otológicas de su persistencia realizando una inserción temprana de tubos de ventilación en el momento de la palatoplastia y reintervenciones ante la aparición de efusión durante el seguimiento. Una segunda estrategia más conservadora, basada en que la mayoría de las OME son asintomáticas, busca evitar las complicaciones de las inserciones repetidas de tubos de ventilación y disminuir los costos, mediante la selección de pacientes a quienes realizar la intervención quirúrgica.

En experiencias internacionales, los partidarios de una conducta de tratamiento quirúrgica han demostrado que niños con FP y OME tratados con tubos de ventilación, comparados a niños sin fisura, no presentan diferencias en la prevalencia de OME y las características del tímpano y audiológicas son similares^{164,165}. Otros estudios, con una estrategia conservadora de tratamiento, han demostrado que sólo 28% de los niños con FP requiere inserción de tubos de ventilación por hipoacusia significativa, otitis media a repetición o retracción timpánica^{166,167}. También se ha demostrado una mayor frecuencia de otitis media aguda, otitis media con efusión y perforaciones timpánicas en el grupo con tratamiento quirúrgico^{168,169}.

Las habilidades de atención y de discriminación auditiva son esenciales en el proceso de la adquisición del lenguaje oral y escrito. La existencia de problemas en estas habilidades pueden causar cambios articulatorios y, posteriormente, en la grafía. La prevalencia de problemas de comunicación es mayor en la población con FL/P comparado con los controles sanos. La asociación de factores orales y auditivos sería una explicación probable para el número mayor de quejas con respecto al lenguaje relatados en los grupos con hendidura¹⁷⁰⁻¹⁷³.

2. 3. 3. Alteraciones en el crecimiento maxilar.

El crecimiento deficiente del complejo naso-maxilar en individuos con FL/P es más frecuente que en la población general por la propia malformación (déficit de tejido e inherente retraso de crecimiento) y por la iatrogenia consecuencia de la cirugía reconstructiva temprana¹⁷⁴. Este deficiente desarrollo del maxilar superior en comparación con el normal desarrollo mandibular provoca alteraciones en la oclusión. La alteración más frecuente consiste en una hipoplasia maxilar que resulta en una clase III, un colapso del arco alveolar y un acortamiento vertical del maxilar¹⁷⁵.

El tratamiento de estas alteraciones se realizan desde edades muy tempranas. En casos de fisura del paladar ancha en los primeros meses de vida se puede modificar la disposición de los segmentos palatinos para favorecer el cierre del paladar y del labio utilizando placas ortopédicas. Las placas debe ser adaptadas periódicamente y sustituidas para adecuarla al crecimiento maxilar. A partir de los cuatro años se valora la necesidad de tratamiento ortopédico para facilitar la expansión y el crecimiento maxilar.

El seguimiento del niño durante un largo período de tiempo es totalmente necesario y se alternarán momentos de tratamiento activo con aparatos de ortodoncia con otros de simple observación del crecimiento facial. Entre los 7 y 9 años de edad se realiza la osteoplastia de la fisura alveolar para reconstruir la continuidad ósea y permitir la correcta erupción dental. Se recomienda cerrar estas durante el periodo de dentición mixta una vez que el maxilar se ha desarrollado.

Una vez finalizado el crecimiento puede existir discrepancias maxilo-mandibulares que no haya sido posible tratar por métodos ortopédico-ortodóncicos y que requiera realizar técnicas de distracción ósea o cirugía ortognática de la deformidad dentoalveolar.

2. 3. 4. Alteraciones dentales.

Los pacientes con fisuras orales presentan una mayor incidencia de alteraciones dentales en comparación con la población general. Los problemas de la dentición no sólo afectan al aspecto sino que tienen repercusión en la articulación del lenguaje y la capacidad de masticación, por lo que la atención al desarrollo dental del niño es importante¹⁷⁶.

a) Caries dental. La caries dental es un problema frecuente de observar en pacientes fisurados, aun en niños muy pequeños, debido a la mala posición de las piezas dentales y a deficiencias en los hábitos de higiene. En un estudio en el Reino Unido se observó hasta un 40% de los fisurados a los 5 años presentaban caries dental¹⁷⁷. Los factores relacionados con la caries dental son: higiene dental deficiente, presencia de fisura palatina, hipoplasia del esmalte, uso de placas intraorales que facilita la proliferación bacteriana así como el uso de mecanismos ortodóncicos.

b) Alteraciones del desarrollo dental. Los pacientes con fisuras orales presentan una mayor incidencia de trastornos de desarrollo dental en comparación con la población general. El anormal crecimiento y erupción de las piezas dentarias adyacentes a la fisura afecta a la posición de éstas y demás piezas dentarias. Se pueden observar alteraciones en número, forma, tamaño, color, posición y tiempo de desarrollo en pacientes fisurados.

Las anomalías dentales más comunes incluyen:

- (1) Agenesia dental: La ausencia de dientes fuera de la zona de la fisura en la dentición permanente se asocia con FL/P¹⁷⁸. También se ha demostrado que cuanto mayor es el tamaño de la fisura, mayor es el número de dientes ausentes.
- (2) Dientes supernumerarios¹⁷⁹.
- (3) Erupción ectópica o transposición dental¹⁸⁰ / Impactación dental
- (4) Hipodontia¹⁸¹.
- (5) Anomalías estructurales: tales como alteraciones del esmalte, geminación y fusión dental.

2. 3. 5. Alteraciones estéticas.

El objetivo fundamental tanto de la queiloplastia inicial como de las cirugías secundarias (revisiones) en pacientes con LL es mejorar la apariencia y función de la región nasolabial, minimizando las posibles secuelas indeseables.

Las alteraciones en la forma y función labial pueden atribuirse a tres mecanismos independientes: (1) limitaciones mecánicas en el movimiento de los tejidos periorales debido a los efectos de la cicatrización; (2) alteraciones dinámicas de la fuerza de la musculatura; (3) problemas de integración sensorio-motora. Estas anomalías pueden resultar en trastornos del movimiento facial, continencia oral, alimentación y comunicación verbal¹⁸².

La percepción del paciente de su apariencia facial tras el tratamiento quirúrgico posee una gran influencia en la satisfacción y la calidad de vida comparado con otros aspectos más relacionados con factores funcionales tales como el habla o la audición^{183,184}. Los pacientes con fisura labial presentan una especial preocupación por su apariencia facial (nariz, labios, boca, perfil y aspecto general facial) y por las posibles secuelas^{8,185} que se atribuyen a la formación de tejido cicatricial¹⁸⁶ y/o a la presencia de asimetrías¹⁸⁷ y que impactan negativamente sobre estética facial.

La decisión de revisar quirúrgicamente el labio es compleja debido a que se basa en una evaluación subjetiva de la forma del labio y la función que realiza el cirujano en conjunción con el paciente y/o sus padres¹⁸⁸.

2. 3. 6. Alteraciones en el habla.

Los trastornos de la voz y el habla en el paciente fisurado tienen un espectro variado. La consecución de un correcto habla se reconoce como uno de los objetivos clave de la atención integral del paciente fisurado. Si los trastornos del habla no son tratados apropiadamente y en el momento adecuado, el niño puede desarrollar problemas de comunicación que pueden conducir a problemas de aprendizaje, exclusión social y ajuste psicosocial adverso y bienestar^{189,190}.

La mayoría de los profesionales están de acuerdo en que la palatoplastia temprana se asocia con mejores resultados en el habla. También son evidentes cambios en el manejo actual que reciben los niños con FP en los servicios de logopedia, interviniendo a edades más tempranas. Los niños que nacen con FP hoy presentan mejores niveles superiores en la calidad del habla que niños que fueron tratados en generaciones pasadas¹⁹¹.

La naturaleza de estos trastornos está en relación con las alteraciones anatómicas de la región y deficiencias funcionales caracterizadas por sonidos compensatorios aprendidos durante el desarrollo del paciente afecto de esta patología, de ahí su variabilidad. Los trastornos se asocian primariamente a deficiencias anatómicas y/o funcionales del anillo muscular velofaríngeo, sin embargo, adicionalmente, se puede observar alteraciones a nivel de paladar, arcadas dentarias y labios que producen defectos en la emisión de ciertos fonemas.

En general, las alteraciones de la voz y el habla en el paciente fisurado se encuentran en las siguientes áreas: alteraciones de la resonancia, emisión nasal de aire audible, articulación compensatoria y desordenes de la voz¹⁹².

1. Alteraciones de la resonancia. Se manifiesta por la excesiva o insuficiente resonancia nasal escuchada en vocales y algunas consonantes.

La afectación del lenguaje más habitual que padecen estos pacientes es la hiperrinolalia caracterizada por una resonancia nasal aumentada o hipernasalidad (pérdida de aire por la nariz durante el habla) como consecuencia de la incapacidad para impedir el paso libre del aire por la cavidad nasal en el proceso de articulación y emisión de la voz por el esfínter velofaríngeo alterado (IVF).

2. Articulación compensatoria. Son patrones atípicos de articulación observados en el habla de pacientes con fisura palatina desarrollados en compensación por la IVF, fístula palatina o mala oclusión dental. Estos sonidos compensatorios aprendidos se originan durante el proceso de adquisición del lenguaje y, una vez adquiridos, pasan a formar parte del léxico del paciente. Esto explica porque la corrección quirúrgica aislada de la IVF no mejora el habla en algunos pacientes fisurados, ya que la cirugía solo corrige la hipernasalidad. Estos sonidos constituyen la deficiencia más seria de la voz y el habla de pacientes con IVF.

3. Emisión nasal de aire audible. El paso de aire hacia las fosas nasales debido a IVF o fistulas palatinas, afecta a las consonantes que requieren del flujo de aire a gran presión para su emisión.

4. Desórdenes de la voz. Se definen como una desviación en las características de la voz debido a un problema estructural y/o funcional a nivel de la laringe. Es debido a presión intraoral reducida secundaria a la IVF.

De manera práctica se han clasificado a los pacientes en 3 grupos para su diagnóstico y tratamiento: recién nacidos (8 a 24 meses), pre-escolares y escolares. El grupo de pacientes que puede beneficiarse más con el tratamiento de la IVF se encuentra entre los 2 a 6 años. Las posibilidades de que un paciente responda al tratamiento está en relación inversa a la edad del paciente a partir de esta edad. A mayor edad del paciente menor posibilidad de recuperar un lenguaje adecuado. Esto es debido a que el paciente crece con un lenguaje el cual está identificado en sus funciones superiores y es difícil de cambiar después.

El tratamiento de la IVF incluye básicamente 2 tipos:

- *No quirúrgico (terapia de voz y habla)*. Tiene por finalidad enseñar la correcta producción del habla y lograr que haya una correcta audibilidad de la emisión vocal apropiadamente en el paciente a través de terapias centradas en la emisión de la voz y la correcta articulación de los fonemas. La presencia de emisión nasal y de sonidos compensatorios en ausencia de evidencia física de IVF o fistulas palatinas es indicación de tratamiento con terapia de voz y habla solamente.

- *Quirúrgico*. La cirugía de corrección de la IVF está indicada en: a) Pacientes con antecedente de cirugía primaria de fisura palatina asociado o no a la presencia de fistulas palatinas posteriores con IVF moderada a severa. b) Corrección de la hipernasalidad.

2. 3. 7. Alteraciones psicológicas.

Los pacientes con FL/P presentan problemas psicosociales debido a su condición. La afectación estética facial por la presencia de la fisura pueden tener consecuencias muy negativas en el ámbito psicológico. En la literatura científica existen múltiples artículos sobre diversos aspectos del funcionamiento psicosocial de estos pacientes en los que se han identificado problemas de comportamiento, baja autoestima, ansiedad, depresión, e insatisfacción con su apariencia facial¹⁹³⁻¹⁹⁵.

Las relaciones sociales también pueden verse afectadas por el estigma social, las burlas y el acoso que pueden comenzar ya desde la edad preescolar. El impacto de la apariencia facial puede reducir la capacidad para hacer amigos con mayor riesgo de exclusión social. Los individuos con FL/P participan en menos actividades y son considerados menos inteligentes y menos sociables que otras personas. La presencia de ansiedad y depresión pueden surgir como resultado de la interacción de estos elementos, pudiendo agravarse por la existencia de deficiencias auditivas o del habla¹⁵. Todo ello puede dar lugar a problemas educativos, profesionales y sociales¹⁹⁶.

Algunos estudios existentes sobre las alteraciones psicosociales de los pacientes con FL/P sugieren que la influencia que ejerce la familia en la percepción por parte de los niños de su condición representa un elemento primordial en el desarrollo de la autoestima y en la aceptación de la situación. Por otro lado, el impacto que el nacimiento de un hijo con una malformación crónica como la FL/P tiene en la familia ha sido ampliamente estudiado abarcando aspectos psicosociales relacionados con la adaptación psicológica de la familia^{197,198}. La forma en que los padres se enfrentan a esta difícil situación suele estar mediada tanto por los recursos sociales de su entorno más próximo como por aspectos psicológicos personales que marcan la inmediatez de las primeras respuestas y organizan en último término la progresiva adaptación parental y familiar a esta malformación, determinante para el futuro bienestar de la familia y el desarrollo saludable e íntegro del bebé con FL/P.



III

OBJETIVOS

3. OBJETIVOS

3.1. OBJETIVOS GENERALES

1. Estudiar y realizar un análisis de parámetros demográficos, clínicos y terapéuticos de los pacientes intervenidos por la Unidad Funcional del Fisurado acorde al protocolo del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla para establecer una muestra representativa del sur de España así como valorar los resultados obtenidos desde el punto de vista clínico y quirúrgico con respecto a los principales indicadores internacionales de calidad en el manejo del paciente fisurado.

2. Evaluar de forma global la calidad de vida de los pacientes fisurados en edad infantil (4-7 años), determinando las posibles alteraciones de las facetas física, psicológica y social en niños tras haber completado las cirugías primarias de la fisura mediante la aplicación de diferentes escalas y cuestionarios validados para contrastar el nivel de CVRS general, salud oral e impacto familiar.

3. 2. OBJETIVOS ESPECÍFICOS

1. Conocer las características sociodemográficas y clínicas de una población de pacientes intervenidos de fisura labial y/o palatina entre los años 2000 y 2009 en la Unidad de Fisurados del Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital Universitario Virgen del Rocío y evaluar los diferentes aspectos que rodean al paciente desde que se inicia su asistencia médica.
2. Examinar la actividad quirúrgica realizada por la Unidad Funcional del Fisurado durante el periodo de 10 años, analizando los principales parámetros cuantitativos (número intervenciones, tipo intervenciones, técnicas empleadas) como cualitativos (edad a la que fueron intervenidos, complicaciones postoperatorias, estancia media o secuelas tardías). Comparar los resultados quirúrgicos obtenidos con los publicados en la literatura tanto en hospitales con el mismo protocolo como con protocolos diferentes.
3. Identificar las posibles diferencias existentes de salud general y oral percibida (CVRS y CVRSO) de los niños fisurados con respecto a controles sanos de la misma edad y área geográfica, analizando las posibles razones que justifiquen las variaciones halladas en las diferentes áreas y dimensiones.
4. Examinar la correlación existente entre los datos de CVRS en pacientes fisurados medidos mediante un cuestionario genérico, un cuestionario de salud oral y preguntas individuales específicas sobre determinados problemas presentes en los pacientes fisurados. Establecer la sensibilidad y capacidad de discriminación de los cuestionarios infantiles existentes en niños con fisuras orofaciales.

5. Evaluar la concordancia existente entre los niveles de CVRS de los niños fisurados percibida por los padres frente a la percibida por ellos mismos, estableciendo posibles excesos o defectos de atención a determinados aspectos por parte de los padres.
6. Estimar el impacto que las fisuras orofaciales ocasionan tanto a nivel individual como familiar debido tanto a su propia existencia como a las derivadas de sus diferentes tratamientos, evaluando la repercusión en distintos ámbitos de la vida.
7. Establecer las variaciones existentes en la salud oral y en la calidad de vida de los niños fisurados debido al tipo de fisura, según predominen las alteraciones estéticas (LL), funcionales (FP) o ambas (FLP).
8. Analizar la influencia que puedan tener diferentes aspectos clínicos, epidemiológicos y terapéuticos en la CVRS de los niños con fisura orofaciales. Los factores que se valorarán para establecer su posible repercusión son la edad de los pacientes (4-5 años frente a 6-7 años), el sexo y necesidad de reintervenciones por secuelas o complicaciones (fístulas, IVF, etc.).



IV

MATERIAL Y MÉTODOS

4. MATERIAL Y MÉTODOS

4.1. TIPO DE ESTUDIO

La investigación de esta Tesis Doctoral constó de dos partes consecutivas:

- Estudio transversal retrospectivo descriptivo clínico-epidemiológico.
- Estudio transversal prospectivo analítico observacional de casos y controles sobre CVRS.

4.2. DURACIÓN DEL ESTUDIO

El desarrollo del estudio abarcó desde Enero de 2010 hasta Diciembre de 2012. En una primera etapa (Enero 2010 a Junio 2010) se llevó a cabo el diseño del proyecto de investigación y posteriormente la realización consecutiva de las fases descriptiva (Junio 2010 a Diciembre 2010) y la fase analítica (Enero 2011 a Diciembre 2012).

4.3. DISEÑO DEL ESTUDIO

1. Primera fase: Estudio descriptivo transversal retrospectivo de pacientes intervenidos por la Unidad Funcional Fisurado (Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial y Servicio de Cirugía Plástica) del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla en el periodo 2000-2009 (“casos incidentes”) de fisura labio-palatina, sometidos a tratamiento siguiendo el protocolo establecido en la Unidad.

2. Segunda fase: Estudio analítico observacional transversal prospectivo de calidad de vida en pacientes de 4-7 años intervenidos por la Unidad Funcional Fisurado (Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial y Servicio de Cirugía Plástica) del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla.

4. 4. ÁMBITO DEL ESTUDIO

El estudio ha sido realizado en el seno del Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla (España).

El conjunto hospitalario tiene asignada una población asignada de 554.891 habitantes en la provincia de Sevilla, aunque también, en algunas de sus especialidades más complejas, como Cirugía Oral y Máxilofacial, el área de influencia del hospital abarca toda la Comunidad Autónoma, y las ciudades autónomas de Ceuta y Melilla, superando la población asignada el millón de personas (1.671.482 habitantes).

Los casos controles fueron reclutados mediante muestreo no probabilístico consecutivo entre los atendidos en el plan de atención infantil (“revisión del niño sano”) en los Centros de Salud de Montequinto (Distrito Sanitario Sur de Sevilla con una población de 35.620 habitantes) y de Santa Olalla del Cala (Distrito Sanitario Sevilla Norte con una población de 2.177 habitantes) por parte de los pediatras R.G.G y F.P.P. respectivamente.

4. 4. 1. Población de estudio. Criterios de selección.

Selección de Casos. La población de estudio inicial prevista para este proyecto fueron los pacientes y sus familiares intervenidos de FL/P (labio leporino y/o fisura palatina) por la Unidad Funcional del Fisurado del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla que cumplieran los criterios de inclusión. La población diana para el estudio de CV fueron los pacientes que se encontraban en el rango de edad de 4-7 años en el momento de la entrevista y aplicación de cuestionarios.

- *Definición de caso.* Paciente diagnosticado y tratado de forma primaria en el periodo comprendido entre 2000 y 2009 de fisura palatina y labio leporino (CIE 749) ya sea fisura palatina (CIE 749.0), labio leporino (CIE 749.1) o fisura labio-palatina (CIE 749.2) en el Hospital Virgen del Rocío. Para formar parte del estudio el paciente debe cumplir los 3 criterios de inclusión y ninguno de los criterios de exclusión.

- *Criterios de Inclusión*
 1. Pacientes afectos de fisura labio-palatina (labio leporino uni o bilateral y/o fisura palatina).
 2. Cirugía primaria y secundaria realizada en el Hospital Virgen del Rocío.
 3. Intervención llevada a cabo por el equipo principal de la Unidad de Fisurados (2 cirujanos maxilofaciales /1 cirujano plástico)

- *Criterios de Exclusión*
 1. Pacientes con síndromes asociados, enfermedades o retraso mental que puedan afectar tanto a la edad de intervención así como el control postoperatorio.
 2. Pacientes que hayan dejado acudir a controles postoperatorios.
 3. Historias clínicas sin registro adecuado de datos epidemiológicos y/o quirúrgicos.
 4. Pacientes que hayan recibido tratamiento primario fuera de las fechas de estudio.
 5. Pacientes con un seguimiento postoperatorio mínimo de 24 meses.
 6. Tratamiento primario realizado por un cirujano diferente a los miembros principales del equipo.
 7. Tratamiento primario llevado a cabo por otro equipo médico en otro Hospital.
 8. Paciente que haya sido éxitus antes de completar al menos el tratamiento primario.
 9. Pacientes intervenidos en programas de cooperación internacional.

Selección de Controles. Los casos controles fueron reclutados por parte del pediatra de forma consecutiva entre niños de 4-7 años que acudían a la “revisión del niño sano” dentro del Plan de Atención Infantil del Centro de Salud. Con la idea de homogeneizar la muestra, se seleccionaron controles de un Centro de Salud de ámbito más urbano (Montequinto) y de otro más rural (Santa Olalla del Cala). Los niños que presentaron algún tipo de patología crónica incapacitante física o mentalmente fueron excluidos.

4. 4. 2. Tamaño muestral.

Dado que el estudio de CVRS es longitudinal prospectivo, para calcular el tamaño muestral estudiamos la incidencia de casos con FL/P atendidos en nuestra Unidad.

El paciente con fisura orofacial generalmente es derivado en las primeras semanas de vida para su valoración y planificación de tratamiento. Puesto que los niños incluidos en el estudio son aquellos con edades entre 4 y 7 años durante el periodo de enero 2011 y diciembre 2012, los pacientes candidatos a su inclusión son aquellos nacidos y atendidos entre los años 2004 – 2008. En el periodo entre los años 2004 y 2008 se trataron 233 nuevos casos (“casos incidentes”) de fisuras orofaciales, representando la población potencial a incluir en el estudio.

4. 5. PROTOCOLO DE RECOGIDA DE DATOS.

En el estudio se utilizaron dos fuentes de información:

1. Historias clínicas del Servicio de Documentación Clínica del Hospital.
2. Cuestionarios de Calidad de Vida. Se emplearon cuestionarios validados para la edad infantil y para la edad adulta (padres).

4. 5. 1. Estudio clínico-epidemiológico.

En la primera fase del estudio se llevó a cabo una revisión manual de las historias clínicas en el Servicio de Documentación Clínica de los pacientes intervenidos por la Unidad Funcional Fisurado (Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial y Servicio de Cirugía Plástica) del Hospital Universitario Virgen del Rocío de Sevilla en el periodo 2000-2009 de FL/P. Inicialmente se realizó una selección de las pacientes que reunían los criterios de inclusión y no presentaban ningún criterio de exclusión. Posteriormente se estableció un protocolo de estudio en que se recogieron de cada paciente datos epidemiológicos, clínico-patológicos y quirúrgicos.

4. 5. 2. Estudio de Calidad de Vida.

A continuación, en una segunda fase se llevó a cabo el estudio de CVRS.

1. Casos. Desde enero 2011 a diciembre de 2012, todos los padres de niños fisurados con edades entre 4 y 7 años que cumplieran todos los criterios de inclusión y ningún criterio de exclusión fueron invitados a participar en el estudio durante la cita de consulta hospitalaria de revisión. Los padres recibieron información verbal y escrita sobre el estudio y se les solicitó dar su consentimiento por escrito. Tras aceptar participar en el estudio, a los padres y niños se les administró de forma presencial y por separado los siguientes cuestionarios, en forma autoadministrada y se respondieron las dudas que pudieran tener al rellenar los mismos. Los cuestionarios fueron entregados por el cirujano y cumplimentados por los participantes en un Despacho adyacente a la Consulta.

- Padres.

- ✓ *Cuestionario de CVRS general: Kiddy-KINDL versión padres*
- ✓ *Cuestionario de CVRS oral: C-OHIP-14*
- ✓ *Cuestionario de impacto familiar: IOFS*

- Niños.

- ✓ *Cuestionario de CVRS general: Kiddy-KINDL*

2. Controles. La muestra de pacientes controles se obtuvo de forma consecutiva en los niños con edades entre 4 y 7 años que acudían a la revisión del niño sano, por su pediatra de Centro de Salud. El cuestionario se entregó en la consulta por el pediatra del Centro de Salud y los participantes rellenaron los datos en la Consulta de enfermería adyacente. Los pediatras colaboradores fueron previamente instruidos para responder posibles dudas sobre el estudio y el cuestionario. Se actuó de forma similar que a los casos, en cuanto a la información suministrada a los padres, la recogida de consentimiento escrito para participar en el estudio así como la administración del cuestionario de CVRS general Kiddy-KINDL y oral C-OHIP-14.

4. 6. VARIABLES DE ESTUDIO

Tras el proceso de revisión bibliográfica, se seleccionaron las variables con interés para el estudio de las fisuras orofaciales en sus vertientes epidemiológica, clínica, quirúrgica y de CVRS.

4. 6. 1. Variables sociodemográficas (Tabla 11)

- Edad. Seleccionamos a los pacientes con una edad entre 4 y 7 años.
- Sexo. Variable cualitativa con dos categorías (hombre-mujer; niño-niña).
- Procedencia: Provincia desde la que el paciente es remitido.
- Historia familiar: Existencia de familiares directos con fisuras orofaciales.

VARIABLE	DEFINICIÓN CONCEPTUAL	PROCEDIMIENTO	TIPO VARIABLE	DIMENSIONES	INDICADOR DEFINICIÓN OPERACION
Edad	Número de años cumplidos al momento entrevista.	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa discreta	4,5,6,7 años	Años
Sexo	Caracteres sexuales que diferencian a un hombre de una mujer	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Femenino Masculino	F:1 M: 2
Procedencia	Provincia desde la que viene derivado el paciente	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Provincias españolas	Provincia
Historia familiar	Existencia de familiares de 1º o 2º grado afecto de fisura orofacial	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Sí No	Sí: 1 No: 0

Tabla 11. Variables sociodemográficas

4. 6. 2. Variables clínicas (Tabla 12)

- Tipo fisura: clasificación clínica de la fisura en función de los parámetros de localización (fisura labial, palatina o labio-palatina), lateralidad (unilateral -derecha o izquierda- o bilateral), grado afectación (completa o incompleta).
- Datos perinatales: Información referente a la edad gestacional (semanas) y peso (gramos) en el momento del nacimiento.

- Tóxicos durante el embarazo: registro de la toma materna de fármacos o sustancias tóxicas durante el embarazo (alcohol, benzodiazepinas o anticonvulsivantes).
- Malformaciones asociadas: Existencia de malformaciones asociadas, estableciendo si se encuadran en el contexto de síndromes/secuencias polimalformativas, así como determinación de los sistemas u órganos afectados.

VARIABLE	DEFINICIÓN CONCEPTUAL	PROCEDIMIENTO	TIPO VARIABLE	DIMENSIONES	INDICADOR DEFINICIÓN OPERACION
Tipo fisura	Categorización clínica de la fisura en función de las estructuras afectas	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Fisura labio-palatina Labio Leporino Fisura Palatina	FLP: 1 LL: 2 FP: 3
Lateralidad	Afectación unilateral (derecha o izquierda) o bilateral	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Unilateral Derecha Izquierda Bilateral	Unilateral: 1 Derecha: 11 Izquierda:12 Bilateral: 2
Grado afectación	Grado de alteración de las estructuras afectas	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Incompleta Completa	Incompleta:1 Completa: 2
Edad gestacional	Semanas de gestación del paciente en el momento del nacimiento	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa discreta	Semanas	Número de semanas
Peso al nacer	Peso del paciente en el momento del nacimiento	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Gramos	Gramos
Consumo tóxicos	Registro de la toma materna de fármacos o sustancias tóxicas durante el embarazo	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Sí (Tipo Tóxico) No	Sí: 1 (Tipo Tóxico) No: 0
Malformación asociada	Presencia de malformaciones asociadas (sindrómicas o no sindrómicas)	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Sí (Tipo malformación) No	Sí: 1 (Tipo malformación) No: 0

Tabla 12. Variables clínicas.

4. 6. 3. Variables quirúrgicas (Tabla 13)

- Tipo intervención quirúrgica: Determinamos el tipo de cirugía que se ha realizado, bien sea queiloplastia, palatoplastia u otras (injertos óseos, tratamiento de secuelas, etc.)
- Año intervención: Año del periodo de estudio en el que se realizó la intervención, para así poder establecer la actividad realizada por la Unidad cada año.
- Técnica quirúrgica: Técnica empleada para la realización de la queiloplastia o de la palatoplastia.
- Edad y peso en el momento de la intervención.
- Duración de la intervención: Tiempo empleado por el cirujano en la realización de la técnica quirúrgica.
- Estancia hospitalaria y necesidad de cuidados intensivos: Días de ingreso (prequirúrgicos y postquirúrgicos) requeridos en el proceso asistencial del paciente así como días de estancia en la unidad de cuidados intensivos en los casos en los que fue necesaria de manera preventiva o por la aparición de complicaciones.
- Complicaciones postoperatorias: Aparición de complicaciones quirúrgicas en el postoperatorio inmediato.
- Secuelas quirúrgicas tardías: Aparición de secuelas estéticas o funcionales tras la realización del procedimiento quirúrgico.

VARIABLE	DEFINICIÓN CONCEPTUAL	PROCEDIMIENTO	TIPO VARIABLE	DIMENSIONES	INDICADOR DEFINICIÓN OPERACION
Tipo intervención quirúrgica	Categorización de la intervención realizada	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Queiloplastia Palatoplastia Otras	Queiloplastia:1 Palatoplastia:2 Otras:3
Año intervención	Año del periodo de estudio durante el que se realizó la intervención	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa discreta	Año de la cirugía entre 2000-2009	Año
Técnica quirúrgica	Técnica empleada en la queiloplastia o palatoplastia	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Millard Tennisson Langenbeck Veau-Wardill Otra	Millard: 1 Tennisson: 2 Langenbeck: 3 Veau-Wardill: 4 Otra: 5
Edad intervención	Edad del paciente en el momento en el que se realizó la intervención	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Meses	Número meses
Peso intervención	Peso del paciente en el momento en el que se realizó la intervención	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Kilogramos	Kilogramos
Duración intervención	Tiempo empleado en la realización de la cirugía	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Minutos	Minutos
Estancia hospitalaria	Número de días de ingreso que requirió el paciente en el proceso de su intervención	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Días	Número de Días
Ingreso en UCI	Necesidad y días de estancia en unidad de cuidados intensivos del paciente en el proceso de su intervención	Cuaderno de recogida de datos	Cuantitativa continua	Días	Número de Días
Complicación operatoria	Complicaciones quirúrgicas ocurridas en el postoperatorio inmediato	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Sí (Tipo complicación) No	Sí :1 (Tipo complicación) No: 0
Secuelas quirúrgicas	Secuelas quirúrgicas tardías	Cuaderno de recogida de datos	Cualitativa nominal	Sí (Tipo complicación) No	Sí :1 (Tipo complicación) No: 0

Tabla 13. Variables quirúrgicas.

4. 6. 4. Variables humanísticas (Tabla 14)

- Calidad de Vida Relacionada con la Salud: Evaluación de la percepción que tiene el paciente y sus padres sobre su bienestar mediante el empleo de los cuestionarios Kiddy-KINDL y Kindl-p
- Calidad de Vida Relacionada con la Salud Oral: Evaluación de la percepción que tienen los padres sobre el bienestar del niño mediante el empleo del cuestionario específico para salud oral C-OHIP.
- Impacto familiar: Impacto que las fisuras orofaciales tienen sobre la unidad familiar según la percepción de los padres.

VARIABLE	DEFINICIÓN CONCEPTUAL	PROCEDIMIENTO	TIPO VARIABLE	DIMENSIONES	INDICADOR DEFINICIÓN OPERACION
CVRS	Evaluación que la persona realiza sobre su grado de bienestar en diversos dominios, considerando el impacto que en éstos ha podido provocar una enfermedad	Kiddy-KINDL	Cualitativa ordinal	Bienestar físico Bienestar emocional Autoestima Familia Amigos Colegio	Nunca: 1 Alguna vez: 2 Muchas veces: 3
CVRS percibida por los padres	Percepción por parte de los padres sobre el grado de bienestar en diversos dominios de su hijo, considerando el impacto que en éstos ha podido provocar una enfermedad.	KINDL-p	Cualitativa ordinal	Bienestar físico Bienestar emocional Autoestima Familia Amigos Colegio	Nunca: 1 Casi Nunca: 2 Algunas veces: 3 Casi siempre: 4 Siempre: 5
CVRSO	Evaluación que la persona realiza sobre su grado de bienestar en diversos dominios, considerando el impacto que en éstos ha podido provocar una enfermedad con repercusión en la salud oral.	C-OHIP	Cualitativa ordinal	Limitación funcional Dolor físico Aflicción psicológica Incapacidad física Discomfort psicológico Incapacidad social Discapacidad	Nunca: 0 Rara vez: 1 A veces: 2 A menudo: 3 Muy a menudo: 4 Siempre: 5
Impacto familiar	Evaluación el impacto que una condición de salud o enfermedad tiene sobre una unidad familiar según la percepción de los padres.	IOFS	Cualitativa ordinal	Carga económica Impacto familiar/social Estrés personal Dominio	Totalmente de acuerdo: 1 De acuerdo en la mayoría de aspectos: 2 En desacuerdo en la mayoría de aspectos: 3 Totalmente en desacuerdo: 4

Tabla 14. Variables humanísticas.

4. 7. CUESTIONARIOS

4. 7. 1. Cuaderno de recogida de datos clínicos

El cuestionario estandarizado constó de una recogida de datos en varios apartados mediante un cuaderno de recogida de datos creado al efecto (Figura 20).

- *Datos epidemiológicos:* información sobre fecha nacimiento, sexo, tipo fisura, historia familiar, datos perinatales.
- *Datos clínico-patológicos:* Se registraron datos referentes a las características de la fisura sobre localización anatómica (labio, alveolo, paladar), lateralidad (uni o bilateral), y grado afectación (completa o incompleta). Esta información se codificó acorde a la Clasificación Internacional de Enfermedades (CIE-9) para las fisuras, formada por tres grupos: Fisura labio-palatina; Labio Leporino, Fisura Palatina.
- *Datos quirúrgicos:* Se llevó a cabo el registro del número de intervenciones realizadas por año, tipo de intervención, técnica empleada, edad y peso del paciente, estancia hospitalaria y complicaciones postquirúrgicas. Los resultados de la cirugía primaria se midieron mediante el registro de la incidencia de fistulas oronasales que requirieron cirugía posterior, incidencia de IVF que requirieron faringoplastia y la incidencia de secuelas labiales estéticas y funcionales que requirieron cirugías correctoras posteriores.

CUADERNO DE RECOGIDA DE DATOS

**FISURA LABIO-PALATINA.
ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO Y VALORACIÓN DE CALIDAD
DE VIDA**

CUADERNO DE RECOGIDA DE DATOS nº |__| |__| |__|

Iniciales del paciente 1^{er} APELLIDO |__| |__| |__| **NOMBRE**
|__| |__|

Investigador (Firma)



Figura 20. Cuaderno de recogida de datos.

PROTOCOLO TRATAMIENTO L. P. H.

***NOMBRE PACIENTE**.....

Fecha:.....

Edad:.....

Fecha nacimiento:.....



***ANTECEDENTES FAMILIARES:**

- A. – de L.P.H.
- B. – de otras malformaciones congénitas.....

*** ANTECEDENTES PERSONALES:**

- A. – Número de hijo:
- B. – Embarazo: ↑ diabetes mellitus ↑ tabaquismo
 ↑ alcoholismo ↑ anticonvulsivantes
 ↑ glucocorticoides ↑ litio
 ↑ ác. Retinoico ↑ dicumarínicos
- C. – Parto
 ↑ pretérmino ↑ término ↑ postérmino
 ↑ parto único ↑ parto gemelar
 ↑ peso al nacer.....
- D. – Otras malformaciones congénitas asociadas
 Sí↑ No↑

- E. – Otras enfermedades.....

*** DIAGNÓSTICO**



- ↑Fisura labio unilateral
 - derecho ↑completo
 - izquierdo ↑incompleto
- Fisura labio bilateral
 - derecho: ↑completo ↑incompleto
 - izquierdo: ↑completo ↑incompleto
- Fisura alveolar
 - derecha ↑izquierda
- Fisura paladar duro
 - derecho ↑izquierdo
- Fisura paladar blando
 - incompleto ↑completo

Figura 20. (Cont.)

*** TRATAMIENTO QUIRÚRGICO:**

A. - ENTRE LOS 3 – 6 MESES EDAD:

- 1-. Queiloplastia unilateral (técnica)
 - Millard Tennisson Randall Otra.....
 - Queiloplastia bilateral (técnica)
 - Millard Otra.....
- 2-. Rinoplastia
 - Mc Comb Otra.....
- 3-. Valoración colocación tubos de ventilación (O.R.L.)

B. - ENTRE LOS 10 – 12 MESES EDAD:

- 1-. Palatoplastia:
 - Von Langenbeck (técnica incisiones mínimas)
 - Veau-Wardill-Killner
 - Furlow
 - Otra.....
- 2-. Revisión cicatriz labio
- 3-. Rinoplastia secundaria
 - Colgajo condromucoso V-Y de avance
 - Z-plastia asimétrica
 - Elongación de columela (injerto cartílago)
- 4-. Valoración colocación tubos de ventilación (O.R.L.)

C. - ENTRE LOS 2 – 7 AÑOS EDAD:

- 1-. Valoración del lenguaje:
 - Lenguaje normal
 - Insuficiencia Velofaríngea (I.V.F)
 - diagnóstico clínico
 - diagnóstico por nasofaringoscopia:
 - patrón A-P
 - implante faríngeo posterior
 - alargamiento paladar
 - colgajo retrofaríngeo
 - patrón lateral
 - faringoplastia de Jackson
 - faringoplastia de Orticoechea
 - faringoplastia San Venero-Roselli

Figura 20. (Cont.)

- 2-. Cierre de posibles fístulas:
 - Rotación de colgajos locales de paladar
 - Rotación de colgajos vestibulares
 - Colgajo de lengua
 - Colgajo de buccinador

- 3-. Control de ortodoncia:
 - Expansión palatina transversa
 - Tratamiento con máscara de tracción facial (Delaire, Le Petit)

D.- ENTRE LOS 7 AÑOS Y EL TÉRMINO DE LA DENTICIÓN MIXTA:

- 1-. Injerto óseo alveolar:
 - esponjosa cresta iliaca
 - otra zona donante:.....

- 2-. Distracción maxilar

E.- MAYORES DE 14 AÑOS:

- 1-. Rinoplastia

- 2-. Cirugía ortognática:
 - osteotomía maxilar Le Fort I:
 - no segmentada segmentada
 - osteotomía mandibular:
 - izquierda sagital vertical
 - derecha sagital vertical

- 3-. Injertos óseos tardíos

- 4-. Revisiones cicatrices labio

Figura 20. (Cont.)

HOJA DE REGISTRO OPERATORIA

NOMBRE		NHC	
LOCALIDAD		SEXO	

FECHA:	EDAD:	PESO:
DIAGNÓSTICO:		
INTERVENCIÓN:		DURACIÓN:
INCIDENCIAS POSTOPERATORIAS:		
INGRESO EN UCI: SÍ <input type="checkbox"/> NO <input type="checkbox"/> DÍAS:		
ESTANCIA HOSPITALARIA DÍAS:		

FECHA:	EDAD:	PESO:
DIAGNÓSTICO:		
INTERVENCIÓN:		DURACIÓN:
INCIDENCIAS POSTOPERATORIAS:		
INGRESO EN UCI: SÍ <input type="checkbox"/> NO <input type="checkbox"/> DÍAS:		
ESTANCIA HOSPITALARIA DÍAS:		

Figura 20. (Cont.)

CRITERIOS DE INCLUSIÓN

Una sola respuesta en la casilla “NO” excluye al paciente del estudio

	SI	NO
Pacientes afectos de fisura labio-palatina (labio leporino uni o bilateral y/o fisura palatina).		
Cirugía primaria y secundaria realizada en el Hospital Virgen del Rocío.		
Intervención llevada a cabo por el equipo principal de la Unidad de Fisurados (2 cirujanos maxilofaciales /1 cirujano plástico)		

Figura 20. (Cont.)

CRITERIOS DE EXCLUSIÓN

Una sola respuesta en la casilla “SÍ” excluye al paciente del estudio

	SI	NO
Pacientes con síndromes asociados , enfermedades o retraso mental que puedan afectar tanto a la edad de intervención así como el control postoperatorio.		
Pacientes que hayan dejado acudir a controles postoperatorios.		
Historia clínicas sin registro adecuado de datos epidemiológicos y / o quirúrgicos.		
Pacientes que hayan recibido tratamiento primario fuera de las fechas de estudio.		
Tratamiento primario realizado por un cirujano diferente a los miembros principales del equipo.		
Tratamiento primario llevado a cabo por otro equipo en otro Hospital.		
Paciente que haya sido éxitus antes de completar al menos el tratamiento primario		
Paciente intervenidos en programas de cooperación internacional		

Figura 20. (Cont.)

4. 7. 2. Cuestionario Calidad de Vida Salud General: Kiddy-KINDL

El cuestionario KINDL es un instrumento genérico de CVRS para niños/as y adolescentes desarrollado en Alemania para ser utilizado en la práctica clínica, así como en niños sanos¹¹⁵. La evaluación de su fiabilidad y validez ha sido aceptable, así como la sensibilidad a los cambios en pacientes pediátricos crónicos en rehabilitación (Figura 21). El cuestionario se encuentra validado y adaptado a múltiples idiomas, entre los que se encuentran inglés, francés, alemán, ruso, turco o italiano. Rajmil y cols desarrollaron la versión española del KINDL en 2004^{199,200}.

Se han sido desarrolladas diferentes versiones del cuestionario para cada grupo de edad: Kiddy-Kindl (4-7 años), Kid-Kindl (8-12 años), y Kiddo-Kindl (13-16 años). Además, incluye dos versiones para los padres de los menores de 4-7 años y de los de 8-16 años de edad. Por otra parte, el cuestionario contiene un módulo con preguntas dirigidas a niños/as y adolescentes que padecen enfermedades crónicas y módulos específicos para asma, obesidad, dermatitis atópica y diabetes.

Las diferentes versiones definitivas del KINDL en castellano incluyen un total de 24 ítems (excepto el kiddy-KINDL compuesto por 12 ítems) divididas en 6 dimensiones o elementos de estudio:

1. *Dimensión de bienestar físico:* contiene 4 ítems relacionados con el estado de salud físico del niño percibido por el mismo o por sus padres.
2. *Dimensión bienestar emocional:* contiene 4 ítems relacionados con el estado de salud emocional y psicológica del niño percibido por el mismo o por sus padres.
3. *Dimensión autoestima:* contiene 4 ítems relacionados con la autoestima del niño percibido por el mismo o por sus padres.
4. *Dimensión familia:* contiene 4 ítems relacionados con la situación del niño en el ámbito familiar percibido por el mismo o por sus padres.
5. *Dimensión amigos:* contiene 4 ítems relacionados con el funcionamiento y adaptación social del niño percibido por el mismo o por sus padres.

6. *Dimensión colegio:* contiene 4 ítems relacionados con el rendimiento escolar y relaciones del niño en el ámbito de la guardería/escuela percibido por el mismo o por sus padres.

Las respuestas del KINDL se recogen en escala Likert de cinco categorías excepto la versión Kiddy, que presenta tres categorías. Las posibles respuestas son:

- | | |
|-------------------------|------------------------|
| 1: <i>Nunca</i> | 1: <i>Nunca</i> |
| 2: <i>Casi Nunca</i> | 2: <i>Alguna vez</i> |
| 3: <i>Algunas veces</i> | 3: <i>Muchas veces</i> |
| 4: <i>Casi siempre</i> | |
| 5: <i>Siempre</i> | |

Las preguntas hacen referencia a la semana anterior a la entrevista y las puntuaciones obtenidas a partir de las medias de cada dimensión se transforman a una escala de 0 a 100 puntos, donde una mayor puntuación representa mejor CVRS. La escala KINDL permite obtener puntuaciones independientes para cada dimensión de la escala así como una única puntuación total o índice global de CVRS a partir de las medias de las seis dimensiones.

$$\text{Valor de la dimensión} = \frac{\text{Suma de los valores de los ítems de la dimensión}}{\text{Número de ítems de la dimensión}}$$

$$\text{Valor total} = \frac{\text{Suma de los valores de todos los ítems}}{\text{Número de ítems}}$$

$$\text{Transformación valor en escala de 100} = \frac{\text{Valor del ítem} - \text{Valor mínimo posible}}{\text{Rango de valores (máximo-mínimo)}} \times 100$$

La puntuación de cada dimensión se calcula como la media de los valores de los ítems que la componen menos el valor mínimo de la escala dividido el rango de la escala y multiplicado por 100.

CUESTIONARIO KIDDY-KINDL

Cuestionario para niños

Kiddy-KINDL[®] Entrevista



Hola:

Nos gustaría saber cómo estás. Para ello hemos preparado algunas preguntas y te pedimos que las contestes.

- ⇒ yo te voy a leer cada una de las preguntas,
- ⇒ piensa cómo te ha ido durante la semana pasada,
- ⇒ pon una cruz en la respuesta que creas mejor para ti.

No hay respuestas buenas o malas. Lo que nos importa es tu opinión.

Cuestionario rellenado el:

Día/Mes/Año

SITIO
PARA PEGATINA O
NÚMERO DE IDENTIFICACIÓN

Figura 21. Cuestionario kiddy-KINDL.

Por favor, cuéntanos primero algo sobre ti.

¿Eres	<input type="checkbox"/> una niña o	<input type="checkbox"/> un niño?
¿Cuántos años tienes?	___ años	
¿Cuántos hermanos tienes?	<input type="checkbox"/> 0 <input type="checkbox"/> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/> 5 <input type="checkbox"/> sobre 5	
¿Vas a la guardería o al preescolar?	<input type="checkbox"/> Guardería <input type="checkbox"/> preescolar <input type="checkbox"/> Ninguno de los dos	

Ahora te voy a leer un ejemplo:

Si oyes la frase: "Durante la semana pasada he tenido ganas de comer helado "

¿Te ha pasado a ti? ¿cuántas veces has tenido ganas de comer helado?

Hay 3 posibles respuestas: *nunca, alguna vez y muchas veces.*

Entonces: ¿Qué dirías tú?

Dirías: Durante la semana pasada ...

nunca he tenido ganas de comer helado

alguna vez he tenido ganas de comer helado

he tenido ganas de comer helado muchas veces

Respuesta del niño/al Si se tiene la impresión de que el niño/a ha entendido el esquema de respuesta puedes empezar con la primera pregunta, sino se repite el ejemplo.

Lo has hecho muy bien. Ahora empezamos.

1. Primero queremos saber algo sobre tu cuerpo, ...

Durante la semana pasada ...	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... me he sentido enfermo/a	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... he tenido dolor de cabeza o dolor de estomago	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

2. ... ahora algo sobre cómo te sientes...

Durante la semana pasada ...	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... me he reído y divertido mucho	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me he aburrido mucho	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Figura 21. (Cont.)

3. ... y lo que piensas de tí mismo/a.

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... me he sentido orgulloso/a de mí mismo/a	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me he sentido bien conmigo mismo/a	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

4. Las siguientes preguntas son sobre tu familia...

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... me he llevado bien con mis padres	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me he sentido a gusto en casa	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

5. ... y ahora sobre tus amigos.

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... he jugado con amigos/as	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me he llevado bien con mis amigos/as	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

6. Ahora nos gustaría saber algo sobre la escuela o guardería

<i>La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería,...</i>	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... he podido hacer bien las tareas en la guardería/el colegio	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me lo he pasado bien en la guardería/el colegio	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

7. ¿Estás en el hospital o hace mucho tiempo que estás enfermo?

Si

contesta, por favor, las 6 preguntas siguientes

No

entonces ya has terminado

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	alguna vez	muchas veces
1. ... tendría miedo que mi enfermedad podría	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
2. ... me he encontrado triste debido a mi enfermedad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
3. ... me las he arreglado bien con mi enfermedad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
4. ... mis padres me han tratado como a un niño pequeño por culpa de mi enfermedad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
5. ... no he querido que nadie se diera cuenta de mi enfermedad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>
6. ... me he perdido actividades en el colegio por culpa de mi enfermedad	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

¡MUCHAS GRACIAS POR TU COLABORACIÓN!

Figura 21. (Cont.)

CUESTIONARIO KIDDY-KINDL PADRES

Identificación: _ _ _ _ _

Cuestionario sobre la calidad de vida de niños y jóvenes
 4-7 años
 Kindl® Versión para los padres



Apreciada madre, apreciado padre:

Muchas gracias por haberse prestado a rellenar este cuestionario sobre el bienestar y la calidad de vida relacionada con la salud de su hijo/a. A la hora de contestar las preguntas siguientes, queremos pedirles que tengan en cuenta las siguientes instrucciones.

- ⇒ lean cada pregunta detenidamente,
- ⇒ piensen en cómo se ha sentido su hijo/a durante la semana pasada,
- ⇒ haga en cada respuesta una cruz que crean mejor para su hijo/a.

Un ejemplo: 

Durante la semana pasada...

	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
... mi hijo se sintió a gusto en casa.	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>

Mi hijo es: niño niña

Edad del niño/a: ___ años

Usted es: la madre el padre otra persona _____?

Rellenado el: ___ / ___ / ___ (día / mes / año)

Figura 21. (Cont.)

1. Bienestar físico

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a se ha sentido enfermo/a	<input type="checkbox"/>				
2. ... a mi hijo/a le ha dolido la cabeza o el estomago	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a ha estado muy cansado/a y agotado	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a ha tenido mucha fuerza y energía	<input type="checkbox"/>				

2. Bienestar emocional

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a se ha reído y divertido mucho	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a no ha tenido ganas para nada	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a se ha sentido solo/a	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a ha tenido miedo y se ha sentido inseguro/a	<input type="checkbox"/>				

3. Autoestima

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a se ha sentido orgulloso de sí mismo/a	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a se ha gustado a sí mismo/a	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a se ha sentido bien consigo mismo	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a ha tenido muchas buenas ideas	<input type="checkbox"/>				

Figura 21. (Cont.)

4. Familia

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a se ha llevado bien con nosotros	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a se ha sentido a gusto en casa	<input type="checkbox"/>				
3. ... hemos tenido fuertes discusiones o peleas en casa	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a ha sentido que no le dejábamos tomar decisiones	<input type="checkbox"/>				

5. Amigos

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a ha jugado con amigos/as	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a ha caído bien a los demás	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a se ha llevado bien con sus amigos/as	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a se ha sentido diferente de los demás	<input type="checkbox"/>				

6. Preescolar/Guardería

<i>La semana pasada, donde mi hijo/a estuvo en el preescolar /guardería...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a ha podido hacer bien las tareas escolares	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a se lo ha pasado bien en la guardería/el colegio	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a se ha alegrado de ir a la guardería/el colegio	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a ha cometido muchos errores en sus tareas o deberes	<input type="checkbox"/>				

Figura 21. (Cont.)

7. Otras preguntas importantes

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... mi hijo/a estuvo de mal humor y quejica	<input type="checkbox"/>				
2. ... mi hijo/a ha comió con apetito	<input type="checkbox"/>				
3. ... pude tratar a mi hijo/a con paciencia y comprensión	<input type="checkbox"/>				
4. ... mi hijo/a estuvo en tensión	<input type="checkbox"/>				
5. ... mi hijo/a pudo dormir bién	<input type="checkbox"/>				
6. ... mi hijo/a retozó y se movió mucho	<input type="checkbox"/>				
7. ... mi hijo/a lloró con facilidad	<input type="checkbox"/>				
8. ... mi hijo/a estuvo alegre y de buen humor	<input type="checkbox"/>				
9. ... mi hijo/a pudo concentrarse bien y estuvo atento	<input type="checkbox"/>				
10. ... mi hijo/a se distrajo con facilidad o estaba despistado	<input type="checkbox"/>				
11. ... mi hijo/a estuvo a gusto con otros niños	<input type="checkbox"/>				
12. ... reñí a mi hijo/a	<input type="checkbox"/>				
13. ... alavé a mi hijo/a	<input type="checkbox"/>				
14. ... mi hijo/a tuvo dificultades con profesores y cuidadoras	<input type="checkbox"/>				
15. ... mi hijo/a estuvo nervioso e inquieto	<input type="checkbox"/>				
16. ... mi hijo/a estuvo atrevido y despierto	<input type="checkbox"/>				
17. ... mi hijo/a se quejó de tener dolores	<input type="checkbox"/>				
18. ... mi hijo/a estuvo sociable	<input type="checkbox"/>				
19. ... todo lo que mi hijo/a empezaba salía bien	<input type="checkbox"/>				
20. ... estaba . mi hijo/a descontento	<input type="checkbox"/>				
21. ... resultaba todo lo que mi hijo empezaba	<input type="checkbox"/>				
22. ... estaba mi hijo/a rapidamente descontento	<input type="checkbox"/>				

© Kiddy-Kindl® / 4-7 años / Ravens-Sieberer & Bullinger / 2000 / Página 4

Figura 21. (Cont.)

8. ¿Está su hijo/a en el hospital o hace mucho tiempo que está enfermo?

Si

No

responda por favor las 6 siguientes preguntas

bueno el cuestionario esta terminado

<i>Durante la semana pasada ...</i>	nunca	casi nunca	algunas veces	casi siempre	siempre
1. ... ha tenido mi hijo/a miedo de que su enfermedad se empeore	<input type="checkbox"/>				
2. ... debido a la enfermedad, estuvo mi hijo/a triste	<input type="checkbox"/>				
3. ... mi hijo/a no ha podido manejar bien su enfermedad	<input type="checkbox"/>				
4. ... he tratado mi hijo/a como un niño debido a su enfermedad	<input type="checkbox"/>				
5. ... mi hijo/a quería que nadie se enterara de su enfermedad	<input type="checkbox"/>				
6. ... ha perdido mi hijo/a actividades en el preescolar o guardería por causa de su enfermedad	<input type="checkbox"/>				

¡Muchas Gracias por su colaboración!

Figura 21. (Cont.)

4. 7. 3. Cuestionario Calidad de Vida Salud Oral: C-OHIP 14

El Child Oral Health Impact Profile (C-OHIP-14) es un cuestionario de 14 ítems diseñado para medir la limitación funcional, el discomfort y el grado de discapacidad atribuido a una determinada condición o patología oral en niños ¹⁴⁹ (Figura 22).

El cuestionario se encuentra validado y adaptado a múltiples idiomas, entre los que se encuentran inglés, francés, holandés o español ²⁰¹.

Los diferentes ítems de la escala engloban las siete dimensiones formuladas en el modelo teórico de salud oral de Locker ¹²³:

1. *Limitación funcional*: contiene 2 ítems relacionados con las dificultades para la pronunciación de las palabras y saborear las comidas.
2. *Dolor físico*: contiene 2 ítems relacionados con el dolor en la cavidad oral o las molestias con la alimentación.
3. *Aflicción psicológica*: contiene 2 ítems relacionados con la existencia de preocupaciones o nerviosismo en relación dientes o boca.
4. *Incapacidad física*: contiene 2 ítems relacionados con la dificultad para comer.
5. *Discomfort psicológica*: contiene 2 ítems relacionados con la dificultad para descansar y el sentimiento de vergüenza relacionados con los dientes o la boca.
6. *Incapacidad social*: contiene 2 ítems relacionados con la existencia de problemas con la familia, amigos y el colegio.
7. *Discapacidad*: contiene 2 ítems relacionados con la satisfacción general en la vida y la capacidad para llevar una vida normal.

Las respuestas del C-OHIP-14 se recogen en escala Likert de 0 a 5, en la que 0 representa ausencia alteración y 5 afectación máxima.

Las posibles respuestas son:

0: Nunca

1: Rara vez

2: A veces

3: A menudo

4: Muy a menudo

5: Siempre

El cuestionario C-OHIP permite obtener puntuaciones independientes para cada dimensión así como una puntuación global de CVRSO. Las puntuaciones se obtienen mediante la media algebraica de las respuestas dadas por los padres a cada uno de los ítems.

CUESTIONARIO CALIDAD DE VIDA COHIP-14

En el último año...

<p>1. ¿Has tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con tu boca o con tus dientes?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>2. ¿Has notado peor el sabor o gusto de las comidas por tener algún problema en la boca o en los dientes?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>3. ¿Te han dolido tus dientes o tu boca en el último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>4. ¿Has notado molestias para comer alguna comida porque te dolieran los dientes?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>5. ¿Has estado preocupado debido a problemas con tu boca o dientes en el último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>6. ¿Te has sentido nervioso por un dolor de muelas en el último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>7. ¿Has tenido problema para comer bien lo que querías por problemas con tu boca o dientes?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>8. ¿Has tenido que parar de comer alguna vez por problemas con tus dientes o boca ?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>9. ¿Has tenido algún problema para descansar o dormir bien a causa de un dolor de muelas o problemas en tu boca en este último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>10. ¿Has "sentido vergüenza" de tus dientes en el último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>11. ¿Has estado un poco irritable y antipático con tus amigos y familia por un dolor de muelas o por otra molestia en la boca?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>12. ¿Has faltado al colegio o no has podido hacer los deberes alguna vez porque te dolían los dientes en el último año?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>
<p>13. ¿Has sentido que la vida te satisface menos por problemas con tus dientes?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>	<p>14. ¿En este último año las molestias o el dolor en la boca te han impedido hacer tu vida normal?</p> <p> <input type="checkbox"/> Nunca <input type="checkbox"/> Casi nunca <input type="checkbox"/> Ocasionalmente, pocas veces <input type="checkbox"/> Bastante a menudo <input type="checkbox"/> Muy a menudo </p>

Figura 22. Cuestionario C-OHIP 14.

4. 7. 4. Escala de Impacto Familiar: IOFS

La “*Impact on Family Scale*” (IOFS) es un instrumento genérico que evalúa el impacto que la condición de salud o enfermedad crónica infantil tiene sobre unidad familiar según la percepción de los padres. El desarrollo de este instrumento, realizado por Stein y Riessman en 1980, se basó en la realización de entrevistas a madres de niños con diferentes enfermedades crónicas. Partiendo de un total de 190 ítems iniciales, se seleccionaron, en cuatro etapas sucesivas, los más representativos^{202,203}.

La escala IOFS se encuentra validada y adaptada a múltiples idiomas, entre los que se encuentran español²⁰⁴, inglés, francés²⁰⁵, alemán, italiano, portugués y turco. La versión española de la IOFS fue desarrollada y validada por Stein y cols en 1985 en padres con enfermedades crónicas hasta 2002 por Alvarado y cols²⁰⁴.

La versión definitiva del IOFS en castellano incluye un total de 24 ítems divididos en 4 dimensiones o elementos de estudio (Figura 23):

6. *Dimensión de carga económica*: contiene 4 ítems relacionados con las consecuencias económicas para la familia ante la presencia de un niño enfermo.
7. *Dimensión del impacto familiar/social*: contiene 9 ítems relacionados con las alteraciones en la interacción social normal tanto dentro como fuera de la familia, como consecuencia de la enfermedad del niño.
8. *Dimensión estrés personal*: comprende 6 ítems que definen al desequilibrio personal experimentado por el padre o la madre que se encarga mayoritariamente del cuidado del niño en relación con la carga psicológica de la enfermedad. Esta dimensión incluye la fatiga constante experimentada por el cuidador, la incertidumbre y la dificultad para planificar el futuro.



9. *Dimensión dominio*: contiene 5 ítems cuyo contenido está relacionado con las estrategias de afrontamiento empleadas por la familia para manejar el estrés de la enfermedad, tales como hablar y compartir, el soporte mutuo, la normalización de la vida del niño y la autoestima que conlleva el buen dominio de la enfermedad.

Las respuestas de la IOFS en escala Likert están codificadas de 1 a 4, en la que 1 representa mayor impacto de la enfermedad del niño y 4 indica menor impacto de la enfermedad. Las posibles respuestas son:

- 1: *Totalmente de acuerdo*
- 2: *De acuerdo en la mayoría de aspectos*
- 3: *En desacuerdo en la mayoría de aspectos*
- 4: *Totalmente en desacuerdo*

La escala IOFS permite obtener puntuaciones independientes para cada dimensión de la escala así como una puntuación global de impacto familiar de la enfermedad crónica del niño. Las puntuaciones se obtienen mediante la suma algebraica de las respuestas dadas por los padres a cada uno de los ítems.

ESCALA IMPACTO FAMILIAR (IOFS)		
Dominio	Nº	Pregunta
Impacto familiar / Social	1	Debido a la enfermedad de su hijo/a, su familia prescinde de ciertas cosas 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	2	Debido a la enfermedad de su hijo/a, sus vecinos o conocidos los tratan de forma no deseada 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	3	Debido a la enfermedad de su hijo/a, ven con menos frecuencia a la familia y a los amigos 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	4	Después de cuidar a su hijo/a no le queda mucho tiempo para el resto de la familia 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	5	No tienen muchas ganas de salir a causa de la enfermedad de su hijo/a 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	6	No pueden viajar a causa de la enfermedad del niño/a 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	7	La enfermedad de su niño/a comporta cambios en los planes de la familia 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	8	Se pregunta si su hijo/a debe recibir un trato "especial" o normal, en relación con los otros niños/as de su edad 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	9	Piensan no tener más hijos a causa de la enfermedad 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>

- 1: Totalmente de acuerdo
- 2: De acuerdo en la mayoría de aspectos
- 3: En desacuerdo en la mayoría de aspectos
- 4: Totalmente en desacuerdo

Figura 23. Escala Impacto Familiar IOFS.

<i>Tensión personal</i>	10	<i>Nadie entiende la carga que significa para usted la enfermedad de su niño/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	11	<i>Desplazarse hasta el hospital le resulta cansado</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	12	<i>La vida familiar gira alrededor de la enfermedad de su hijo/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	13	<i>Es difícil encontrar una persona de confianza para dejarla al cuidado de su hijo/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	14	<i>Viven día a día y no hacen planes para el futuro</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	15	<i>El cansancio es un problema para usted debido a la enfermedad de su hijo/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
<i>Dominio</i>	16	<i>Aprender a manejar la enfermedad de su hijo/a le han hecho sentir mejor consigo mismo/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	17	<i>Debido a lo que han compartido, en relación con la enfermedad, son una familia más unida</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	18	<i>Su marido y usted comentan los problemas de su hijo</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	19	<i>Intentan tratar a su hijo/a como si fuera un niño normal</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>
	20	<i>Sus parientes se muestran comprensivos y serviciales con su hijo/a</i> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/>

- 1: Totalmente de acuerdo
- 2: De acuerdo en la mayoría de aspectos
- 3: En desacuerdo en la mayoría de aspectos
- 4: Totalmente en desacuerdo

Figura 23. (Cont.)

Carga económica	21	<i>Necesitan ingresos adicionales para poder cubrir los gastos que ocasiona la enfermedad</i> <div style="display: flex; justify-content: space-around; align-items: center;"> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/> </div>
	22	<i>La enfermedad del niño/a ocasiona problemas económicos a la familia</i> <div style="display: flex; justify-content: space-around; align-items: center;"> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/> </div>
	23	<i>Debido a la enfermedad del niño/a pierde/n tiempo de trabajo</i> <div style="display: flex; justify-content: space-around; align-items: center;"> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/> </div>
	24	<i>Ha/n reducido su horario laboral para poder cuidar de su hijo/a</i> <div style="display: flex; justify-content: space-around; align-items: center;"> 1 <input type="checkbox"/> 2 <input type="checkbox"/> 3 <input type="checkbox"/> 4 <input type="checkbox"/> </div>

- 1: Totalmente de acuerdo*
- 2: De acuerdo en la mayoría de aspectos*
- 3: En desacuerdo en la mayoría de aspectos*
- 4: Totalmente en desacuerdo*

Figura 23. (Cont.)

4. 8. PLAN DE TRABAJO

4. 8. 1. Etapa de diseño:

Periodo: *Enero 2010 - Junio 2010*

- ✓ Reuniones del equipo investigador.
- ✓ Diseño del estudio.
- ✓ Diseño de la hoja clínica individual de recogida de datos.
- ✓ Selección de los cuestionarios y escalas de medición de calidad de vida e impacto familiar.
- ✓ Diseño de base de datos.

4. 8. 2. Primera fase: Estudio clínico-epidemiológico.

Periodo: *Julio 2010 - Diciembre 2010*

- ✓ Revisión manual de las Historias Clínicas.
- ✓ Identificación de casos, aplicación de criterios de inclusión y exclusión.
- ✓ Introducción de resultados en la base de datos.
- ✓ Análisis simple y estratificado de los resultados.

4. 8. 3. Segunda parte: Estudio de calidad de vida.

Periodo: *Enero 2011 - Diciembre 2012*

- ✓ Identificación de casos, aplicación de criterios de inclusión y exclusión. Solicitud Informe Comité de Ética.
- ✓ Aplicación de cuestionarios de calidad de vida.
- ✓ Introducción de resultados en la base de datos.
 - ✓ Análisis simple, estratificado y multivariante de los resultados.
 - ✓ Análisis de los datos de calidad de vida.

4. 9. CONSIDERACIONES ESTADÍSTICAS

La información recogida se almacenó y manejó desde una base de datos diseñada a tal efecto para que puedan importarse o exportarse al programa de tratamiento de textos, a la hoja de cálculo y al de gráficos.

La introducción de datos se realizó con el programa Microsoft Office Excel 2003® (Microsoft Corporation, Redmon, Washington). El control de calidad de los datos se realizó de dos formas. Durante la introducción de datos, mediante un sistema automático que sólo permitía introducir códigos previamente definidos y, posteriormente, mediante revisión y detección de incoherencias en la etapa de preparación y depuración de la base de datos previa al análisis estadístico.

El análisis estadístico de los resultados obtenidos se realizó mediante el programa SPSS 15.0® para Windows (Statistical Package for Social Sciences – SPSS Inc. Chicago, Illinois).

El *análisis descriptivo* inicial contiene los estadísticos básicos de las distintas variables demográficas clínicas estudiadas continuas y ordinales: media, desviación estándar, mínimo, máximo y mediana; así como frecuencias y porcentajes para las categóricas.

El análisis estadístico bivariante engloba todos los contrastes estadísticos necesarios para evaluar las relaciones propuestas:

- *Pruebas de validez interna* de las escalas mediante los coeficientes Alfa de Cronbach para comprobar que las escalas utilizadas en los cuestionarios son correctas. El α de Cronbach es una media ponderada de las correlaciones entre los ítems o preguntas que forman parte de la escala. Es el estadístico utilizado para analizar la fiabilidad de las escalas que determina el grado de consistencia interna de una escala de medición mediante el cálculo de la correlación media de una de sus variables con todas las demás variables de la escala. Su valor varía entre 0 y 1, de manera que cuanto más cercano esté el valor del α de Cronbach a 1 mayor es la consistencia interna de los ítems que componen el instrumento de medición. El coeficiente alfa

esperado se estimará en 0,70 de modo que se considerará que valores del alfa superiores a dicho valor serán suficientes para garantizar la fiabilidad de la escala, y así considerar que el instrumento hace medidas consistentes y estables.

- *Prueba de Kolmogorov-Smirnov*: Se ha utilizado como prueba de ajuste a una distribución normal de las variables continuas. La aceptación de la normalidad permitirá la aplicación de pruebas de tipo paramétrico; mientras la no aceptación determinará el uso de no paramétricas.
- *Pruebas no paramétricas* de comparación de distribuciones:
 - para muestras independientes:
 - Prueba de Mann-Whitney (M-W) para dos muestras independientes.
 - Prueba de Kruskal-Wallis (K-W) para varias muestras independientes Permiten contrastar si la distribución de un parámetro, cuando menos ordinal, es o no la misma en dos o más muestras independientes, es decir, detectan si existen diferencias significativas entre las puntuaciones de los cuestionarios según los distintos factores a considerar (edad, sexo, etc.)
 - para muestras relacionadas:
 - Prueba de Wilcoxon para contrastar la homogeneidad de distribuciones en dos muestras relacionadas. En concreto, para contrastar la coherencia entre las percepción de los niños sobre su calidad de vida y la de sus padres.
 - *Correlaciones multivariantes (Coeficiente de correlación de Spearman)* para comprobar la relación lineal existente entre los distintos parámetros a investigar (medidas continuas con distribución no normal).

El *nivel de significación* empleado en todos los análisis bivariantes ha sido el 5% ($\alpha=0,05$). Las relaciones estadísticamente significativas se visualizan en los gráficos más adecuados para su interpretación.

En cuanto a la *potencia del contraste*, ésta se mide por la probabilidad de rechazar H_0 (hipótesis nula) cuando sea falsa, es decir, representa la probabilidad de observar en la muestra una determinada diferencia o efecto, si existe en la población. La potencia de un test es mayor cuanto más grande es la muestra. Suelen ser aceptables potencias entre el 80%-90%, es decir, que la probabilidad de no detectar un efecto o diferencia, cuando éstos existen, está entre el 10% y el 20%.

4. 10. ASPECTO ÉTICOS Y LEGALES DEL ESTUDIO.

El protocolo de investigación “Fisura Labio-palatina, estudio clínico-epidemiológico y valoración de calidad de vida” fue aprobado por el Comité de Ética de la Investigación de centro H.U. Virgen del Rocío en la Sesión celebrada el día veintiocho de marzo de dos mil doce (Figura 24).

Este estudio cumple con los requisitos de la Declaración de Helsinki sobre principios éticos para la investigación médica sobre personas, cuidando en especial los aspectos relativos a la confidencialidad de los datos clínicos y analíticos de los participantes.

INFORME COMITÉ DE ÉTICA



Servicio Andaluz de Salud
CONSEJERÍA DE SALUD

INFORME DEL COMITÉ DE ÉTICA DE LA INVESTIGACIÓN DE CENTRO H.U. VIRGEN DEL ROCIO

El Comité de Ética de la Investigación de centro H.U. Virgen del Rocio de Sevilla, reunido en la Sesión celebrada el día veintiocho de marzo de dos mil doce y según consta en el acta 03/12, ha valorado el estudio presentado por el Dr. D. Pedro Infante Cossio, titulado:

2012PI/086 "Fisura labio-palatina. estudio clínico-epidemiológico y valoración de calidad de vida"

Se emite **INFORME FAVORABLE**

En Sevilla, a nueve de abril de dos mil doce



Fdo.: Javier Bañista Paloma
Presidente

Hospital Universitario VIRGEN DEL ROCIO
AVDA. MANUEL SIJROT S/N - 41013 - SEVILLA

Cod. 010470

Figura 24. Informe Comité de Ética.

A los padres de los pacientes afectos se les entregó una invitación por escrito a participar en el estudio y un consentimiento informado (Figuras 25 y 26) . En esta carta se les explica:

- 1) Las finalidades estrictamente científicas y no comerciales del estudio.
- 2) Que tienen el derecho de negarse a participar en el estudio, y que en caso de aceptación pueden abandonarlo en cualquier momento.
- 3) Que los datos obtenidos en la entrevista, exploraciones y pruebas analíticas son estrictamente confidenciales y se adoptarán medidas especiales para que no se vulnere el derecho a la intimidad de los participantes.
- 4) Que en ningún caso se facilitarán o se publicarán resultados individuales sino exclusivamente resultados agrupados en tablas o en gráficos que no permitirán la identificación de los participantes.
- 5) Que la participación en el estudio no conlleva ningún riesgo adicional para su salud ni detrimento en la calidad de la asistencia que va a recibir en el hospital, ya que en este estudio no se le va a administrar ningún fármaco ni procedimiento quirúrgico o de índole terapéutica adicional.
- 6) En caso de tener dudas pueden consultar con los médicos responsables de su asistencia o con los investigadores del proyecto.

HOJA DE INFORMACIÓN AL PACIENTE

FISURA LABIO-PALATINA. ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO Y VALORACIÓN DE CALIDAD DE VIDA

Estimado señor/a:

Su hijo/hija ha sido intervenido de una malformación del labio o paladar. Por favor lea detenidamente esta hoja y no dude en preguntar cualquier cosa que no entienda o solicitar más información antes de firmar el consentimiento informado.

El labio leporino y/o la fisura de paladar es una de las malformaciones más frecuentes en el mundo de la cavidad bucal. En España, y más concretamente en Andalucía, la situación es similar. El planteamiento terapéutico tradicional incluye la cirugía primaria del labio (que se suele realizar entre los 3 y 6 meses), la cirugía primaria del paladar (entre los 12 y 18 meses) y la cirugía correctora de secuelas (insuficiencia velofaríngea, cicatrices, fistulas,...), que se suelen intervenir entre los 2 y 5 años. Tras el tratamiento pueden aparecer un conjunto de limitaciones y secuelas que pueden determinar una disminución de la capacidad física y de la calidad de vida de los niños. Estas disfunciones comprometen aspectos como la apariencia física, el habla, audición, etc. que pueden conducir a resultados adversos duraderos para la salud y la integración social. Los niños afectados, que necesitan atención multidisciplinaria desde el nacimiento hasta la edad adulta, tienen mayor morbilidad y mortalidad. Parece haber cada vez más acuerdo que con el empleo de una guía clínica de actuación específica y un programa de tratamiento integral, el proceso que padece su hijo/hija mejorará el pronóstico global de los pacientes y la calidad de vida. Para estudiar este hecho se realizará un estudio en el cual le proponemos participar.

Este estudio será realizado respondiendo a unos cuestionarios especialmente diseñados al efecto para valorar la calidad de vida de los niños. Si acepta participar en el estudio es necesario que antes de comenzar confirmemos que su hijo/hija es un candidato adecuado. Si su hijo/hija cumple los requisitos médicos para ser incluido en el estudio, pasará a la fase de estudio. Se le pedirá que rellene un cuestionario para conocer la calidad de vida después del tratamiento.

Este estudio no entraña para su hijo/hija.

El investigador responsable de este ensayo es el Dr. Infante Cossío; el cual le informará, contestará a sus dudas y preguntas, y en caso de urgencia, podrá contactarle en el teléfono 955 012608 en caso de que surja algún problema.

Los resultados finales del estudio podrán ser publicados por los investigadores por motivos profesionales, en revistas y publicaciones científicas, o utilizados para un fin lícito, manteniendo siempre los datos concernientes a los sujetos del estudio.

Su consentimiento debe darse por escrito de forma voluntaria. En cualquier momento, usted podrá decidir retirarse del estudio, sin tener que dar explicaciones, y sin que por ello se altere la relación con su médico, ni produzca perjuicio en el seguimiento y tratamiento de su hijo/hija.

Fecha y firma:

Figura 25. Hoja de información al paciente.

CONSENTIMIENTO INFORMADO DEL PACIENTE**FISURA LABIO-PALATINA.
ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO
Y VALORACIÓN DE CALIDAD DE VIDA**

Don/Doña de..... años de edad, con D.N.I. no

DECLARO:

Que el Dr/Dra.....me ha explicado detalladamente en que consiste el proyecto de investigación del que mi hijo/hija va a formar parte, que no va a ser sometido/a a exploraciones innecesarias o potencialmente lesivas, de que en ningún caso va a alterar el adecuado seguimiento y tratamiento de su dolencia, y de que la información obtenida va a ser estrictamente confidencial.

He leído la hoja de información que se me ha entregado sobre el estudio.
He podido hacer las preguntas y dudas que he creído oportunas sobre el estudio.
He recibido suficiente información sobre el estudio.
He hablado con mi médico, Dr.

CONSIENTO:

En que los datos obtenidos de las consultas y exploraciones que se le puedan realizar a mi hijo/hija sean empleados para la realización del proyecto de investigación, y que las conclusiones extraídas se puedan presentar, respetando el anonimato de los pacientes, a la comunidad científica.

He comprendido que puedo retirar a mi hijo/hija del estudio:

- En cualquier momento.
- Sin dar explicaciones.
- Sin que afecte a mi futura atención médica.

Así pues, presto libremente mi conformidad para participar en el estudio.

Sevilla, a de de

Firma del paciente (padre o tutor)

Firma del médico

Fecha

Nombre y Apellidos (mayúsculas, letra clara)

.....

Figura 26. Consentimiento informado del paciente.



RESULTADOS

5. 1. ESTUDIO CLÍNICO-EPIDEMIOLÓGICO

Durante el periodo de Enero de 2000 a Diciembre de 2009 un total de 776 pacientes fueron intervenidos por la Unidad de Fisurados del Hospital Virgen del Rocío. De ellos, 316 fueron excluidos por no cumplir los criterios de inclusión, quedando 460 pacientes sometidos a tratamiento quirúrgico primario (Figura 27).

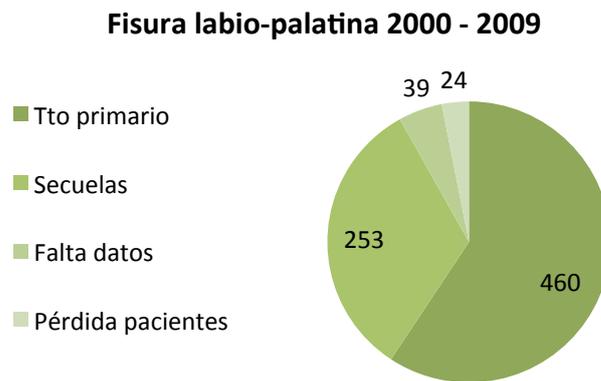


Figura 27. Pacientes intervenido entre 2000 – 2009.

5. 1. 1. Datos epidemiológicos

Incidencia de casos atendidos

Las cifras de pacientes nuevos atendidos permanecieron estables durante el periodo de años con una media de 46 pacientes nuevos por año (Figura 28). Al valorar la evolución a lo largo de los años incluidos en el estudio se observó una tendencia al alza, siendo los dos últimos años los que presentaron un mayor número de nuevos casos (49 casos nuevos durante el año 2008 y 51 durante el año 2009).

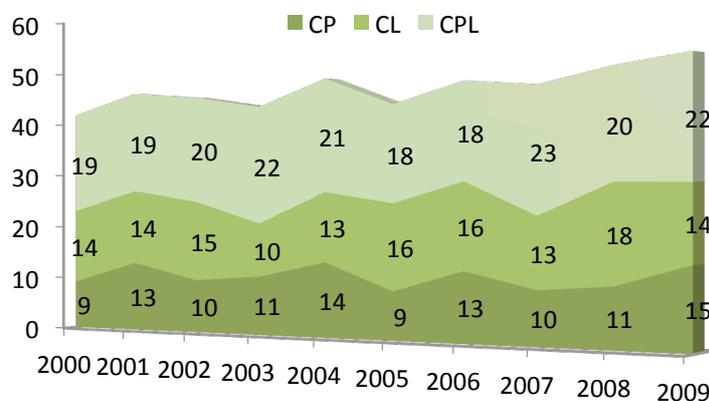


Figura 28. Número pacientes nuevos por año y tipo fisura.

Procedencia geográfica.

El área geográfica de niños atendidos por fisura labio-palatina abarca toda Andalucía (predominio de las provincias de referencia) e incluso niños procedentes de otras comunidades (5,2%) (Tabla 15).

PROCEDENCIA	Porcentaje (n)
Sevilla	58,5% (269)
Huelva	15,7% (72)
Cádiz	11,5% (53)
Jaen	6,1% (28)
Almería	2,0% (9)
Málaga	0,6% (3)
Córdoba	0,2% (1)
Granada	0,2% (1)
Otras	5,2% (24)

Tabla 15. Procedencia geográfica de pacientes atendidos.

Tipo fisura labio-palatina.

La población de estudio fue analizada con respecto al tipo de fisura (Figura 29) y a la distribución en función de la lateralidad y afectación completa/incompleta. (Tabla 16). El tipo de defecto mayoritariamente tratado fue la FLP (43,9%) seguido de los casos de LL (30,2%) y FP (25,9%).

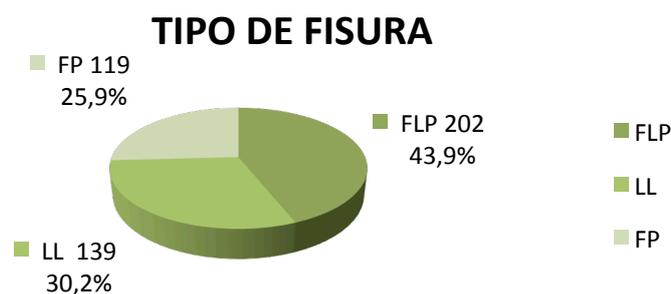


Figura 29. Distribución según el tipo de fisura

El número de casos con afectación unilateral fue de 283 (83%) frente a los 58 casos (17%) con fisura bilateral. De los casos unilaterales fueron más comunes que los bilaterales tanto en los casos de afectación labial aislada (87,1% frente a 12,9%) como en la combinada con afectación palatina (80,2% frente a 19,8%).

Con respecto a la lateralidad en la fisura labial, la localización en el lado izquierdo se presentó en casi el doble de casos que la afectación del lado derecho (184 casos frente a 99 casos). Las fisura incompletas se presentaron en 234 de los casos (50,9%) frente a los 226 casos de afectación completa (49,1%).

TIPO DE FISURA	Nº pacientes	%
Total	460	100,0%
Labio Leporino	139	30,2%
Unilateral completo derecho	16	
Unilateral completo izquierdo	23	
Unilateral incompleto derecho	30	
Unilateral incompleto izquierdo	52	
Bilateral completo	7	
Bilateral incompleto	11	
Fisura Labio-Palatina	202	43,9%
Unilateral completa derecho	30	
Unilateral completa izquierdo	64	
Unilateral incompleta derecho	23	
Unilateral incompleta izquierdo	45	
Bilateral completa	29	
Bilateral incompleta	11	
Fisura Palatina	119	25,9%
Completa	54	
Incompleta	57	

Tabla 16. Distribución fisuras según tipo, localización y grado afectación.

Sexo

Con respecto al género de los pacientes atendidos, se observó un predominio global en el sexo masculino con 249 (54,1%) frente a los 211 (45,9%) pacientes de sexo femenino (Figura 30).

DISTRIBUCIÓN POR SEXOS

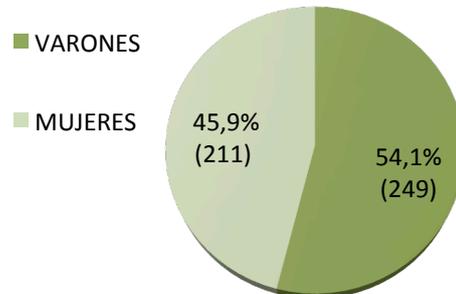


Figura 30. Distribución por sexos

Al analizar los datos de forma independientes se observó variabilidad dependiendo del tipo de fisura. En el caso de los pacientes con FLP se encontró un predominio de varones (56,9%), de manera similar a lo observado en los pacientes con LL aislado (64,7%). Por el contrario en el caso de la FP aislada predominó el sexo femenino con un 63% de los casos (Figura 31, Tabla 17).

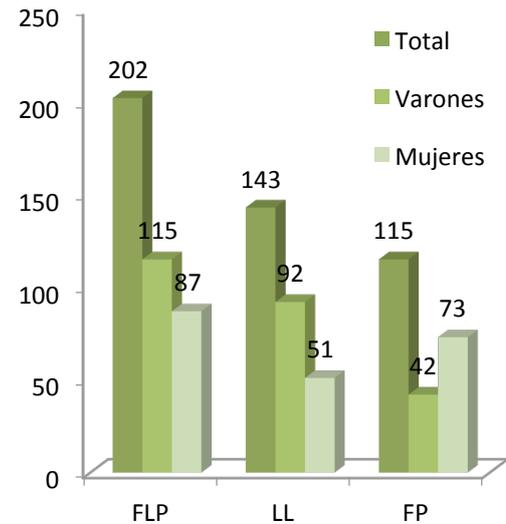


Figura 31. Distribución por sexos según tipo fisura

	TOTAL	FLP	FP	LL
Ratio Masculino : Femenino	1,18	1,32	0,59	1,84
Ratio Unilateral : Bilateral	4,88	4,05	---	6,72
Ratio Izquierdo : Derecho	1,86	2,06	---	1,63
Ratio Incompleto : Completo	1,04	0,64	1,06	2,02

Tabla 17. Ratios distribución fisuras según sexo, localización y grado afectación.

Malformaciones asociadas.

Las FL/P se asocian en un porcentaje variable a otras malformaciones. En nuestro estudio 78 pacientes (16,7%) de los 460 pacientes analizados presentaban al menos una anomalía asociada.

De acuerdo al tipo de fisura presente, el grupo en el que se observó un mayor porcentaje de malformaciones fue en el de pacientes con FLP (23,3% de los casos), seguido del grupo con FP (16,8%), siendo los pacientes con LL los que presentaron un menor índice de malformaciones asociadas (7,9%). El mayor índice de malformaciones asociadas se observó en los casos de afectación bilateral con un 31% de anomalías asociadas (5 casos en los 18 pacientes con LL bilateral y 13 casos en los 40 pacientes con FLP bilateral) (Figura 32).

Malformaciones asociadas

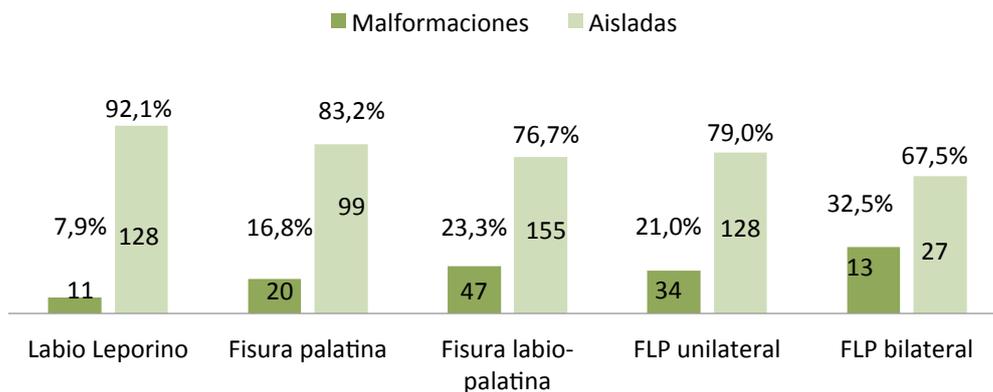


Figura 32. Distribución malformaciones asociadas según tipo fisura.

Al analizar los 78 casos con malformaciones asociadas, 22 de ellos (28,2%) se presentaron en el contexto de síndromes /secuencias polimalformativas, siendo los más frecuentes la secuencia Pierre-Robin (6 casos), Síndrome Down (4 casos), seguido de Síndrome de Van der Woude y Síndrome de Di George (3 casos cada uno) (Tabla 18).

SÍNDROMES / SECUENCIAS	TOTAL
Cromosómico (cariotipo anormal):	7
Síndrome Down	4
Síndrome Patau	1
Delección 1q23.3-q24.2	1
46XY 22ps+ síndrome	1
Síndromico	9
Síndrome de Van der Woude	3
Síndrome di George	3
Síndrome de Opitz	1
Síndrome de Larsen	1
Síndrome Zlogotora Martínez	1
Secuencia Pierre-Robin	6

Tabla 18. Síndromes / Secuencias polimalformativas asociadas.

En el caso de los 56 pacientes con defectos congénitos aislados o múltiples no asociados a síndromes, las alteraciones más frecuentemente observadas fueron las anomalías del sistema cardiovascular (35 casos) seguido del sistema músculo-esquelético (28 casos) (Figura 33, Tabla 19).

DEFECTOS CONGÉNITOS AISLADOS O MÚLTIPLES	TOTAL
Sistema músculo-esquelético	28
Miembro superior	7
Mano y dedos	6
Brazos	1
Miembro inferior	17
Pie y dedos	8
Pierna	1
Cadera	8
Tronco	4
Costilla	2
Vértebra	2
Sistema cardiovascular	35
Defecto Septum ventricular	8
Ductus arterioso persistente	7
Tetralogía de Fallot	4
Transposición grandes vasos	3
Comunicación interventricular	6
Estenosis congénita válvula pulmonar	4
Coartación de Aorta	3
Sistema gastrointestinal	11
Divertículo Meckel	1
Hernia inguinal	3
Hernia diafragmática	2
Atresia esofágica	1
Atresia anal	1
Estenosis Hipertrófica de piloro	2
Malrotación intestinal	1
Sistema ocular	8
Estenosis vía lacrimal	5
Coloboma iris	3
Sistema urogenital	7
Alteraciones pelvis renal	1
Criptorquidia	2
Hidrocele	1
Hipospadia	2
Alteración cervix	1
Neurológicas	8
Retraso mental	6
Atrofia cortical	2
Faciales	13
Oreja implantación anómala	6
Hemangioma	4
Restos preauriculares	2
Hipertelorismo	1
Respiratorias	2
Estenosis traqueal	2
Endocrinológicas	2
Hipotiroidismo	2

Tabla 19. Malformaciones asociadas

Si analizamos de forma individual los distintos defectos hallados más frecuentes destacan los defectos de septum ventricular a nivel cardiaco y las alteraciones de cadera y de pie y dedos a nivel del sistema musculoesquelético con 8 casos cada uno.

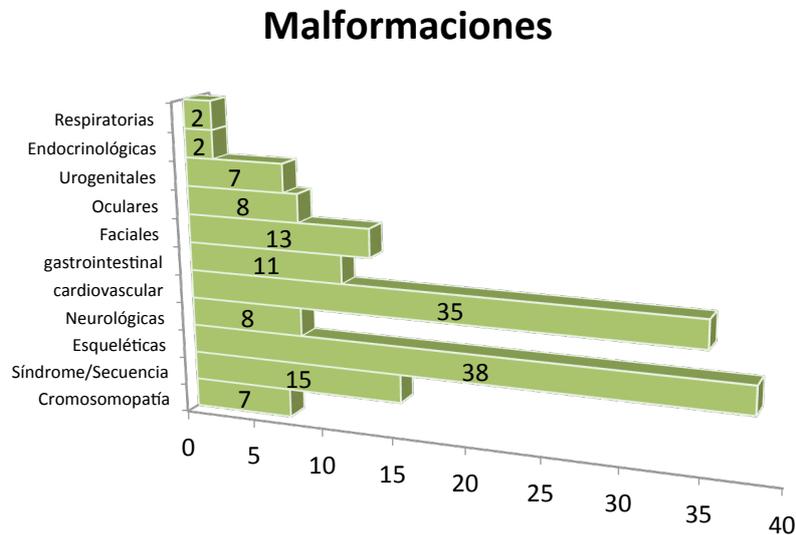


Figura 33. Malformaciones por sistemas y órganos.

Antecedentes gestacionales.

De los datos perinatales estudiados podemos destacar que en la mayoría de los casos 422 (91,8%), el parto fue a partir de las 38 semanas y sólo 38 (8,2%) fueron prematuros. La mayoría de los pacientes fueron normosomas (93,5%), y sólo 6,5% al nacimiento fueron microsomas (< 2.500 gr).

En 18 pacientes (3,9%) se verificó la toma materna de fármacos o sustancias tóxicas durante el embarazo.

- Alcohol : 6 casos
- Benzodiacepinas: 8 casos
- Anticonvulsivantes: 4 casos

Al analizar el porcentaje de casos con historia familiar de fisuras orofaciales, se constató que en 56 casos (12,2%) existían familiares de primer grado afectados de fisura.

5. 1. 2. Datos quirúrgicos

Número intervenciones

En el periodo de tiempo estudiado de 10 años se llevaron a cabo 707 intervenciones sobre 438 pacientes, descartados los 22 pacientes con síndromes asociados (Figura 34). La intervención más frecuente fue la queiloplastia (46,3%) seguida de la palatoplastia (43%).

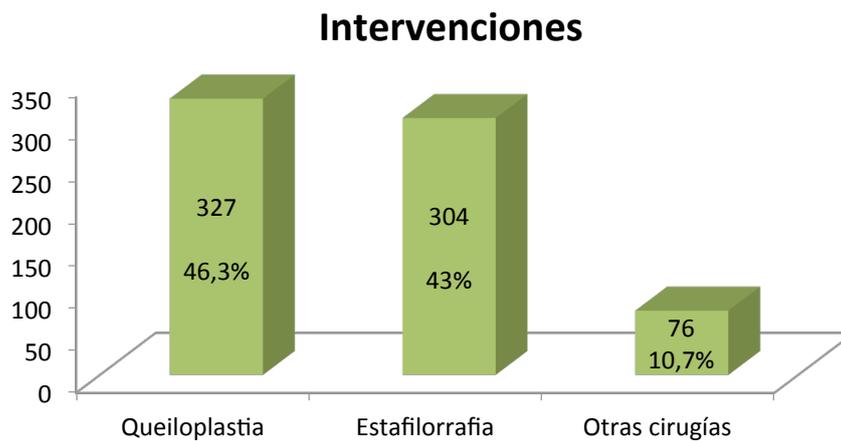


Figura 34. Intervenciones realizadas

Queiloplastia

Durante el periodo incluido en el estudio se han realizado 327 queiloplastias primarias (276 unilaterales y 51 bilaterales). Los datos quirúrgicos recogidos fueron la técnica quirúrgica, empleada, edad y peso del paciente, duración de la intervención, estancia hospitalaria así como necesidad de cuidados intensivos y complicaciones postquirúrgicas.

Técnica quirúrgica

La técnica más habitualmente empleada fue la técnica de avance-rotación de Millard (82,3% de las intervenciones), realizada en 269 casos tanto en fisuras unilaterales como bilaterales. En el 17,7% restante de los casos se emplearon otras técnicas quirúrgicas, siendo la más destacada la técnica de Tennison-Randall con 31 casos (9,5%)(Tabla 20).

TÉCNICA QUEILOPLASTIA	LL UNILATERAL	LL BILATERAL	TOTAL
MILLARD	234	35	269 (82,3%)
TENNISON-RANDALL	27	4	31 (9,5%)
OTRAS	15	12	27 (8,2%)

Tabla 20. Técnicas de queiloplastia empleadas.

Edad / Peso / Duración intervención.

La edad media a la que realizó la intervención fue de 5,3 meses siendo la edad más frecuentemente observada en los pacientes de esta serie de 6 meses (Tabla 21). Con respecto al peso de los pacientes al realizar la queiloplastia primaria, el peso más frecuente fue de 7,000 kg. con una media de 7,120 kg. La duración de la intervención fue de 110 minutos de media, siendo 120 minutos la duración más frecuentemente observada.

N = 327	EDAD (meses)	PESO (Kg)	DURACIÓN (minutos)
MEDIA	5,3	7,120	110
MEDIANA	6	7,000	120
MÍNIMO	3	4,300	70
MÁXIMO	21	11,300	180

Tabla 21. Edad / Peso / Duración intervención queiloplastia.

Estancia hospitalaria / Cuidados Intensivos

La estancia media de los pacientes intervenidos de la fisura labial fue de 6 días, siendo la estancia más habitual de 7 días. Solo en 15 de los 327 casos (4,6%) se requirió la estancia de los primeras horas postoperatorias en cuidados intensivos de manera preventiva por las malformaciones asociadas de los pacientes (Tabla 22).

N = 327	ESTANCIA (días)	U.C.I. (días)
MEDIA	6	0,06
MEDIANA	7	0
MÍNIMO	4	0
MÁXIMO	17	3

Tabla 22. Estancia hospitalaria / Cuidados intensivos queiloplastia.

Complicaciones postoperatorias

Las aparición de complicaciones post-operatorias del tratamiento del LL fue infrecuente con una incidencia de 1,83%, siendo la dehiscencia de la herida y la hemorragia posoperatorias las más comunes con 2 casos cada una. Las demás complicaciones observadas fueron problemas respiratorios y vómitos postoperatorios (Tabla 23).

COMPLICACIÓN	N	PORCENTAJE
Total	6 / 327	1,83%
Dehiscencia sutura	2 / 327	0,61%
Hemorragia	2 / 327	0,61%
Problemas respiratorios	1 / 327	0,31%
Vómitos postoperatorios	1 / 327	0,31%

Tabla 23. Complicaciones postoperatorias queiloplastia.

Estafilorrafia

Durante el periodo incluido en el estudio se han realizado 304 palatoplastias primarias (172 casos de fisura completa y 132 de fisura incompleta). Los datos quirúrgicos recogidos fueron la técnica quirúrgica, empleada, edad y peso del paciente, duración de la intervención, estancia hospitalaria así como necesidad de cuidados intensivos y complicaciones postquirúrgicas.

Técnica quirúrgica

La técnica más habitualmente empleada fue la técnica de Veau-Wardill-Kilner (141 casos) seguidas de la palatoplastia de Von Langenbeck (131 casos). En el 10,5% restante de los casos se emplearon otras técnicas quirúrgicas, siendo la más destacada la Z-plastia de Furlow.

Al analizar por separado los datos según el tipo de fisura, la técnica predominante en los casos de FP incompleta fue la técnica de Von Langenbeck mientras en los casos de FP completa la técnica más empleada fue la de Veau-Wardill-Kilner (Tabla 24).

TÉCNICA PALATOPLASTIA	FP COMPLETA	FP INCOMPLETA	TOTAL
TOTAL	172	132	304 (100%)
VON LANGENBECK	59	72	131 (43,1%)
VEAU-WARDILL-KILNER	98	43	141 (46,4%)
OTRAS	15	17	32 (10,5%)

Tabla 24. Técnicas de palatoplastia empleadas.

Edad / Peso / Duración intervención.

La mayoría de los pacientes, 83,9% (255 / 304) fueron intervenidos de la fisura palatina dentro del periodo propuesto en el protocolo (12-18 meses) y con las condiciones adecuadas de peso. La edad media a la que realizó la intervención fue de 17,5 meses siendo la edad más frecuentemente observada en los pacientes de esta serie de 18 meses.

Con respecto al peso de los pacientes al realizar la palatoplastia primaria, el peso más frecuente fue de 11,300 kg. con una media de 10,700 kg. La duración de la intervención fue de 108 minutos de media, siendo 90 minutos la duración más frecuentemente observada (Tabla 25).

N = 304	EDAD (meses)	PESO (Kg)	DURACIÓN (minutos)
MEDIA	17,5	10,700	108
MEDIANA	18	11,300	90
MÍNIMO	12	8,500	50
MÁXIMO	31	19,200	170

Tabla 25. Edad / Peso / Duración intervención palatoplastia.

Estancia hospitalaria / Cuidados Intensivos

La estancia media de los pacientes intervenidos de la fisura del paladar fue de 9,3 días, siendo la estancia más habitual de 7 días. La mayoría de pacientes requirieron estancia de al menos 24 primeras horas postoperatorias en cuidados intensivos de manera preventiva para control de vía aérea. La estancia media en cuidado intensivos fue de 1,3 días con una mediana de 1 día (Tabla 26).

N = 304	ESTANCIA (días)	U.C.I. (días)
MEDIA	9,3	1,3
MEDIANA	7	1
MÍNIMO	5	0
MÁXIMO	22	8

Tabla 26. Estancia hospitalaria / Cuidados intensivos palatoplastia.

Complicaciones postoperatorias

El porcentaje de las complicaciones inmediatas post-operatorias de la cirugía del paladar, como hemorragias, problemas respiratorios, necrosis del colgajo y otros fue del 3,6% (11/304), sin una secuela de gravedad (Tabla 27).

COMPLICACIÓN	N	PORCENTAJE
Total	11 / 304	3,62%
Dehiscencia sutura	4 / 304	1,32%
Necrosis colgajo	2 / 304	0,66%
Hemorragia	2 / 304	0,66%
Problemas respiratorios	2 / 304	0,66%
Vómitos postoperatorios	1 / 304	0,33%

Tabla 27. Complicaciones postoperatorias palatoplastia.

Resultados quirúrgicos y secuelas.

Cirugía secundaria de labio

Las principales secuelas de la cirugía del LL son las anomalías estéticas (cicatriz hipertrófica, discrepancia borde vermellón, asimetría, etc.) y las alteraciones funcionales en la reparación muscular (muesca labial, deformidad, etc.).

La cirugía secundaria labial fue necesaria en 44 de los 327 pacientes (13,4%). La reconstrucción labial fue menos satisfactoria en el caso de las fisuras bilaterales con un 23,5% de los casos requiriendo cirugías correctoras frente al 11,6% de los casos de LL unilateral (Tabla 28). Las rinoplastias secundarias por razones estéticas suelen realizarse a edades mayores por lo que no se incluyen en este estudio.

TIPO FISURA LABIAL	% CIRUGÍA SECUNDARIA
LL unilateral (276)	32 (11,6%)
LL bilateral (51)	12 (23,5%)

Tabla 28. Secuelas secundarias de LL.

Cirugía secundaria de paladar

Las complicaciones más comunes a largo plazo de la cirugía del paladar son las fistulas y la IVF (Tabla 29).

TIPO FISURA PALATINA	FÍSTULA PALATINA	I.V.F
FP	37 / 304 (12,2%)	28 / 304 (9,2%)
FP completa	28 / 172 (16,3%)	17 / 172 (9,9%)
FP incompleta	9 / 132 (6,8%)	11 / 132 (8,3%)

Tabla 29. Secuelas secundarias de FP .

La incidencia de fistulas palatinas en nuestra serie fue del 12,2% con un predominio en los casos de FP completa. Como en la mayoría de estudios recientes, las fisuras alveolares no cerradas intencionalmente no se contabilizaron como fistulas verdaderas, es decir, solo se consideraron las posteriores al agujero nasopalatino. El número de niños que presentaron fistulas oronasales manejadas de forma conservadora fue de 12 mientras que 25 (8,2%) requirieron tratamiento quirúrgico. De las 25 fistulas quirúrgicas, 4 de ellas recurrieron y necesitaron cirugías posteriores (Tabla 30).

VARIABLE	N	FÍSTULAS (%)
Clínica		
Asintomática	-	12
Intervención quirúrgica	-	25
Sexo		
Hombre	150	17
Mujer	154	20
Tipo fisura		
Incompleta	132	9
Completa	172	28
Localización		
Paladar duro	-	7
Unión paladar duro-blando	-	28
Paladar blando	-	2
Técnica palatoplastia		
Von Langenbeck	131	16
Veau-Wardill-Kilner	141	18
Otras	32	3

Tabla 30. Análisis fistulas tras palatoplastia .

Con respecto al sexo, un total de 20 de 154 niñas (13%) y 17 de 150 niños (11,3%) presentaron fistulas orosinusales. Con respecto a la localización de la fistula, la mayoría ellas (27 casos) se localizaron en la unión del paladar duro y el blando, 8 casos en el paladar duro y 2 casos en el paladar blando. La presencia de fistulas fue más común en pacientes con fisura completa (28 casos) que en aquellos que presentaron formas incompletas (9 casos). La técnica quirúrgica empleada no constituyó un elemento diferenciador ya que 16 fistulas aparecieron en los casos tratados mediante la técnica de Von Langenbeck (12,2% casos) y 18 fistulas en los niños operados mediante la palatoplastia de Veau-Wardill-Kilner (12,8%).

El número de niños que requirió cirugías secundarias para la corrección de una IVF fue de 28 (9,2%). Las técnicas empleadas para la corrección de la IVF fueron la Z-plastia de Furlow con 12 casos y la faringoplastia de SanVenero Roselli con 16 casos (Tabla 31). La proporción de pacientes con formas completas que requirieron tratamiento quirúrgico de la IVF fue de 17 casos (60,7%) frente a los 11 niños con fisuras incompletas (39,3%).

	FP completa	FP incompleta	Total
IVF	17 (60,7%)	11 (39,3%)	28 (100%)
Z-plastia Furlow	7	5	12 (42,9%)
SanVenero-Roselli	10	6	16 (57,1%)

Tabla 31. Análisis IVF tras palatoplastia .

5. 2. ESTUDIO CALIDAD DE VIDA

5. 2. 1. Variables sociodemográficas

El grupo de estudio estaba constituido por 171 pacientes afectados de fisura orofacial y 186 controles sanos con edades comprendidas entre 4 y 7 años.

Edad

La edad media de los pacientes estudiados fue de 5,7 años con una desviación estándar de 1,1 años, con un recorrido entre los 4,0 (4 años 0 meses) y 7,92 (7 años 11 meses) y una mediana de 5,75 años (Tabla 32, Figura 35).

N = 171	Valor
Media	5,7
Desviación estándar	1,1
Mínimo	4,0
Máximo	7,92
Mediana	5,75
Moda	5,83

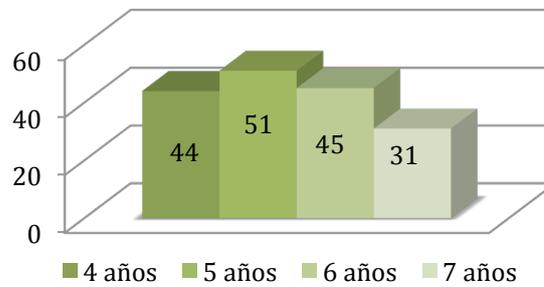


Figura 35. Distribución por grupos edad

Tabla 32. Edad pacientes

Sexo

Respecto al sexo, entre los 171 pacientes estudiados, 92 eran varones (53,8%), y las mujeres fueron 79 (46,2%) con una proporción hombre/mujer de 1,16 (Figura 36).

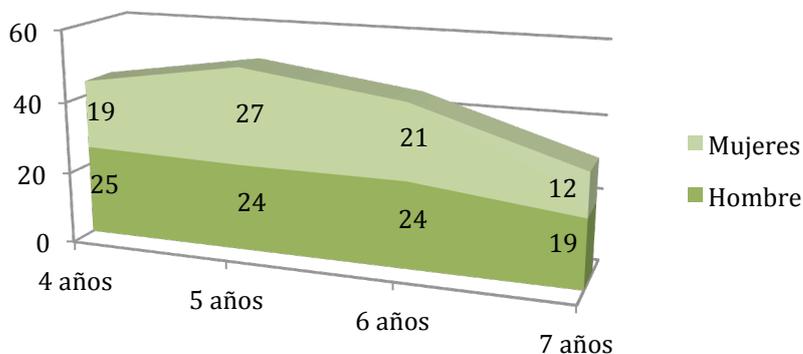


Figura 36. Distribución por sexo y edad.

Tipo fisura

Con respecto al tipo de fisura, de los 171 niños con fisuras orofaciales de la muestra, 64 tenían fisura labial y palatina (37,4%), 56 presentaban afectación labial aislada (32,8%) y 51 fisura del paladar aislada (29,8%) (Figura 37, Tabla 33).

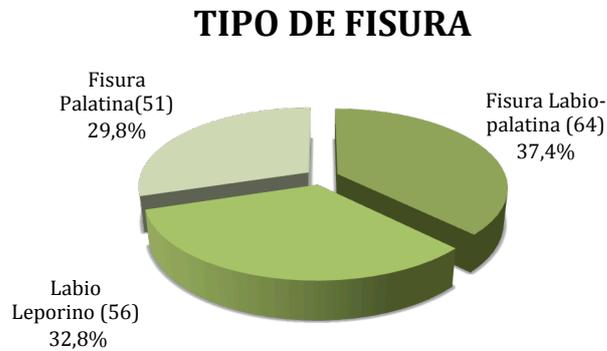


Figura 37. Distribución por tipo de fisura.

	HOMBRE	MUJER	4-5 años	6-7 años
Fisura Labio-Palatina	37	27	36	28
Fisura Palatina	19	32	31	20
Labio Leporino	36	20	28	28

Tabla 33. Distribución por sexo y edad según tipo de fisura.

Reintervención

El número de pacientes que requirió la reintervención para el tratamiento de secuelas o complicaciones fue de 28 (16,4%) con un ligero predominio en los niños afectados de fisura del paladar aislada o asociada a labio leporino (Figura 38).

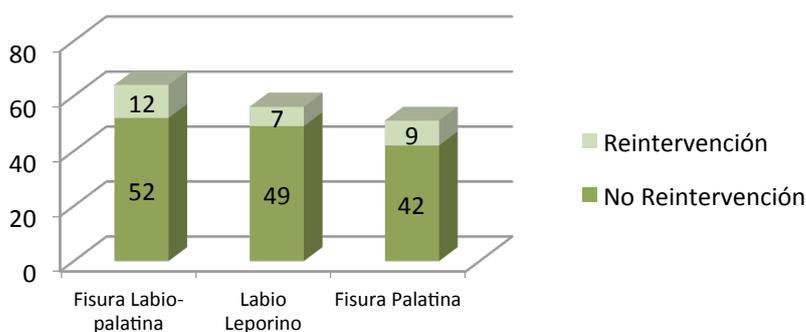


Figura 38. Necesidad de reintervención por tipo de fisura.

5. 2. 2. Cuestionario respondido por niños (Kiddy-KINDL)

El cuestionario Kiddy-KINDL fue respondido de forma satisfactoria y completa por todos los niños fisurados y controles.

Validez Interna

El **Alfa de Cronbach** (1951) es el estadístico utilizado para analizar la fiabilidad de las escalas que determina el grado de consistencia interna de una escala de medición mediante el cálculo de la correlación media de una de sus variables con todas las demás variables de la escala. Su valor varía entre 0 y 1, de manera que cuanto más cercano esté el valor del α de Cronbach a 1 mayor es la consistencia interna de los ítems que componen el instrumento de medición.

DIMENSIÓN	α de Cronbach
Bienestar físico	0,654
Bienestar emocional	0,580
Autoestima	0,563
Familia	0,556
Amigos	0,483
Colegio	0,526
Módulo enf. crónicas	0,778

Tabla 34. Validez interna de kiddy-KINDL.

Para las 6 dimensiones que conforman la encuesta, el alfa de Cronbach oscila entre 0,45 y 0,65, valores no muy elevados que indican que las dimensiones no están muy bien determinadas por la escala que las miden. El módulo de enfermedades crónicas sí que está bien medido por la escala. El alfa global de los 12 ítems juntos es de 0,803, lo que confirma la excelente validez de la encuesta KINDL como instrumento de medición de la calidad de vida del paciente a nivel general pero no a nivel dimensional (Tabla 34).

Análisis de resultados

Los resultados globales observados mediante este cuestionario muestran valores altos en la población de niños con fisuras orofaciales con una media de 82,11 (\pm 14,74) por lo que el impacto de esta anomalía craneofacial en la CVRS es bajo (Tabla 35).

			KINDL global 0- 100	KINDL Dimensión Bienestar físico 0-100	KINDL Dimensión Bienestar emocional 0-100	KINDL Dimensión autoestima 0-100	KINDL Dimensión Familia 0-100	KINDL Dimensión Amigos 0-100	KINDL Dimensión Colegio 0-100
Niño	Sano	N válido	186	186	186	186	186	186	186
		Media	83,71	85,22	86,02	83,47*	81,72	82,39	84,95
		Desv. típ.	16,67	22,73	21,26	22,78	23,72	23,01	20,01
		Máximo	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00
		Mediana	90,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00
		Mínimo	40,00	25,00	25,00	25,00	25,00	25,00	25,00
	Fisurado	N válido	171	171	171	171	171	171	171
		Media	82,11	86,11	84,50	78,07*	79,82	83,48	84,65
		Desv. típ.	14,74	21,02	21,89	24,88	23,38	19,58	22,40
		Máximo	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00	100,00
		Mediana	85,00	100,00	100,00	75,00	75,00	100,00	100,00
		Mínimo	50,00	25,00	25,00	25,00	25,00	25,00	25,00

Tabla 35. Cuestionario kiddy-KINDL: niños sanos y niños fisurados. * Diferencia significativa ($p < 0,05$).

Al valorar las distintas dimensiones de manera independiente, se observa una menor CV en las dimensiones de autoestima (media $78,17 \pm 24,88$) y familia (media $79,82 \pm 23,38$) (Figura 39).

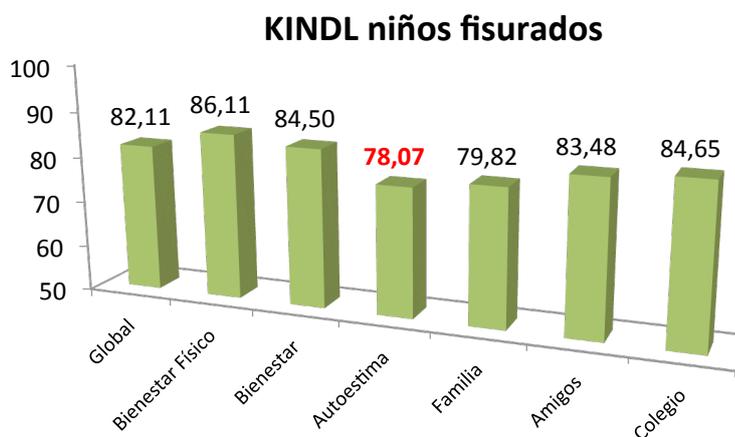


Figura 39. Dimensiones cuestionario kiddy-KINDL: niños fisurados.

Cuando comparamos con el grupo de referencia control, los valores obtenidos tanto en los valores globales (82,11 vs 83,71) como por dimensiones son muy similares. La única diferencia significativa estadísticamente en la percepción sobre CV entre niños sanos y niños fisurados se da en la dimensión de la autoestima ($p < 0,036$) donde los niños fisurados perciben su autoestima 5 puntos por debajo respecto a los niños sanos en la escala 0-100 (Figura 40, Tabla 36).

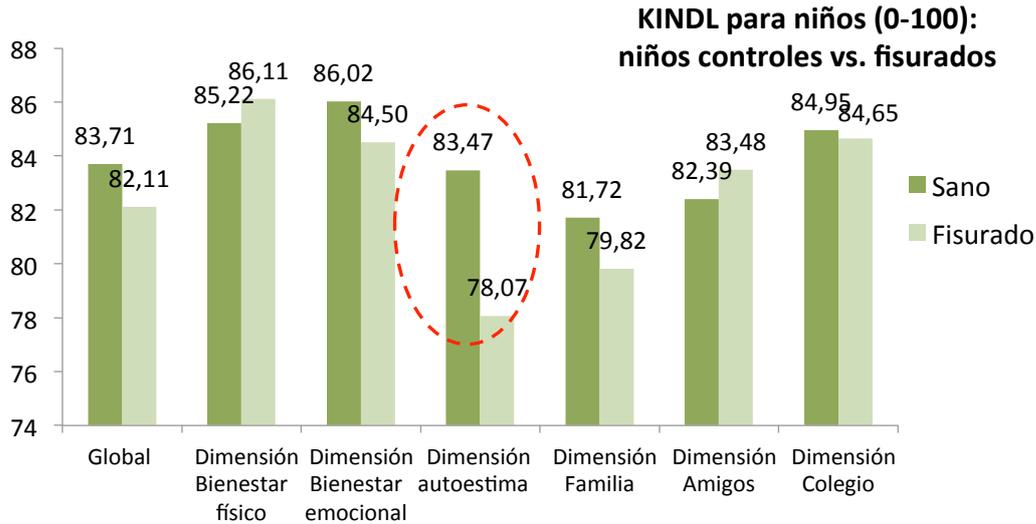


Figura 40. Dimensiones cuestionario kiddy-KINDL:niños fisurados.

KINDL para niños	p-valor (prueba)						
	Dimensión Bienestar físico 0-100	Dimensión Bienestar emocional 0-100	Dimensión autoestima a 0-100	Dimensión Familia 0-100	Dimensión Amigos 0-100	Dimensión Colegio 0-100	Global 0-100
FISURA OROFACIAL Vs CONTROLES	0,958 (M-W)	0,446 (M-W)	0,036* (M-W)	0,333 (M-W)	0,897 (M-W)	0,695 (M-W)	0,113 (M-W)

Tabla 36. Dimensiones cuestionario kiddy-KINDL:niños fisurados. * Diferencia significativa ($p < 0,05$).

El análisis multivariante para saber qué dimensiones están interrelacionadas entre sí detectó algunas combinaciones de factores que afectaban a la CV (Tabla 37). En general, la dimensión del bienestar físico no está relacionada con ninguna otra dimensión evaluada por los niños por lo que su alteración no parece asociarse a una mayor afectación del resto de dimensiones. Sin embargo, el resto de dimensiones parecen estar interrelacionadas, siendo la correlación más elevada y positiva la que se da entre las dimensiones “Colegio” y “Enfermedad crónica” seguida de la combinación “Autoestima” y “Bienestar emocional”.

Rho de Spearman		KINDL Dimensión Bienestar físico	KINDL Dimensión Bienestar emocional	KINDL Dimensión Autoestima	KINDL Dimensión Familia	KINDL Dimensión Amigos	KINDL Dimensión Colegio
KINDL Dimensión Bienestar emocional	Coefficiente de correlación	0,025					
	Sig. (bilateral)	0,741					
KINDL Dimensión Autoestima	Coefficiente de correlación	0,061	0,506 (**)				
	Sig. (bilateral)	0,431	0,000				
KINDL Dimensión Familia	Coefficiente de correlación	0,135	0,388 (**)	0,464 (**)			
	Sig. (bilateral)	0,077	0,000	0,000			
KINDL Dimensión Amigos	Coefficiente de correlación	0,031	0,095	0,110	0,247 (**)		
	Sig. (bilateral)	0,687	0,215	0,151	0,001		
KINDL Dimensión Colegio	Coefficiente de correlación	0,127	0,322 (**)	0,314 (**)	0,481 (**)	0,393 (**)	
	Sig. (bilateral)	0,099	0,000	0,000	0,000	0,000	
KINDL Módulo Enfermedad crónica	Coefficiente de correlación	0,001	0,249 (**)	0,254 (**)	0,456 (**)	0,474 (**)	0,532 (**)
	Sig. (bilateral)	0,989	0,001	0,001	0,000	0,000	0,000

Tabla 37. Correlaciones entre dimensiones KINDL fisurados. ** Correlación es significativa al nivel 0,01 (bilateral).

Tipo de fisura

Cuando analizamos los datos con respecto a los distintos tipos de fisura, se observan valores elevados de CVRS en niños con LL ($84,02 \pm 14,54$) y valores inferiores y bastante similares para los niños con FP ($80,78 \pm 15,95$) y con FLP ($81,48 \pm 13,96$). Sin embargo, estas diferencias descriptivas no fueron significativas a nivel estadístico, al igual que tras analizar las diferentes dimensiones de forma individualizada (Figura 41, Tabla 38).

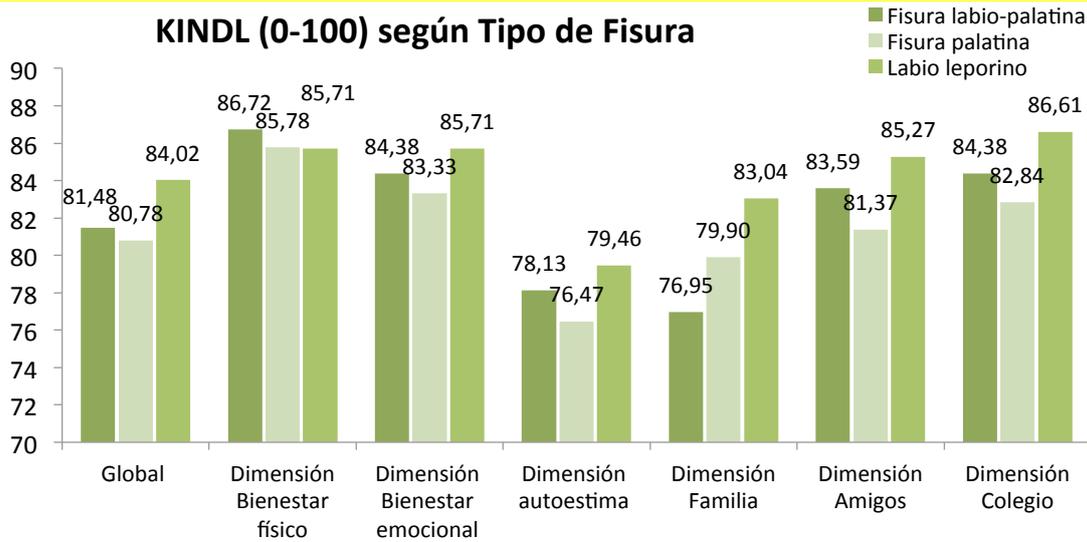


Figura 41. Dimensiones cuestionario kiddy-KINDL según tipo fisura.

Otros factores (edad, sexo, reintervención)

El análisis del resto de aspectos valorados (sexo, edad, y reintervenciones) no reflejó diferencias estadísticamente significativas en la percepción sobre la calidad de vida del niño fisurado ni de forma global ni en las distintas dimensiones (Figura 42, Tabla 38).

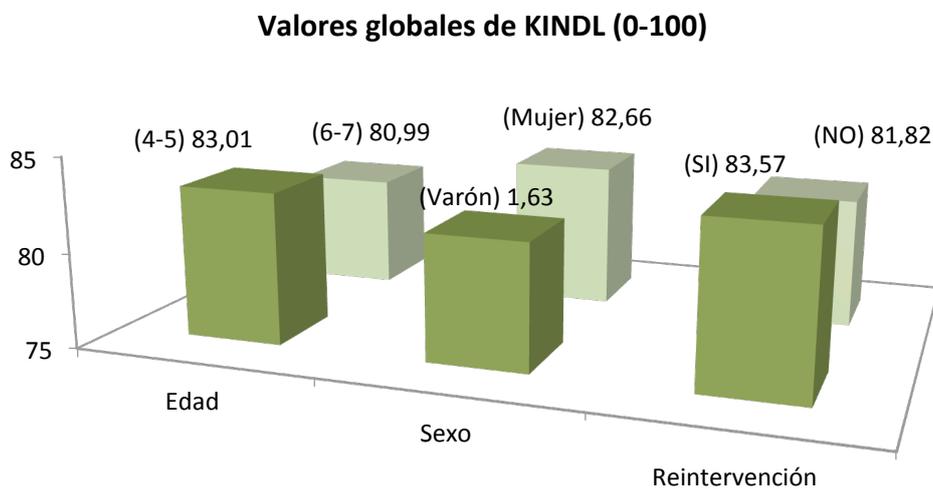


Figura 42. Valores globales de cuestionario kiddy-KINDL según edad, sexo y reintervención

Kiddy-KINDL		p-valor (prueba)							Enfermeda des crónicas
		Dimensión Bienestar físico 0-100	Dimensión Bienestar emocional 0-100	Dimensión autoestim a 0-100	Dimensión Familia 0-100	Dimensión Amigos 0-100	Dimensión Colegio 0-100	Global 0-100	
FISURA OROFACIAL Vs CONTROL		0,958 (M-W)	0,446 (M-W)	0,036* (M-W)	0,333 (M-W)	0,897 (M-W)	0,695 (M-W)	0,113 (M-W)	
NIÑOS FISURA	SEXO	0,804 (M-W)	0,889 (M-W)	0,356 (M-W)	0,939 (M-W)	0,452 (M-W)	0,158 (M-W)	0,516 (M-W)	0,083 (M-W)
	EDAD (≤5 años; > 5 años)	0,975 (M-W)	0,080 (M-W)	0,327 (M-W)	0,133 (M-W)	0,561 (M-W)	0,599 (M-W)	0,258 (M-W)	0,463 (M-W)
	TIPO DE FISURA	0,974 (K-W)	0,901 (K-W)	0,827 (K-W)	0,358 (K-W)	0,666 (K-W)	0,957 (K-W)	0,490 (K-W)	0,120 (K-W)
	REINTERVENCIÓN	0,550 (M-W)	0,347 (M-W)	0,399 (M-W)	0,841 (M-W)	0,626 (M-W)	0,176 (M-W)	0,725 (M-W)	0,377 (M-W)

Tabla 38. Significación estadística cuestionario KINDL por dimensiones y grupos.

Si se analizan las puntuaciones por sexo, edad y reintervenciones en cada tipo de fisura la única diferencia estadística que se aprecia es la fisura labio-palatina a nivel de edad y reintervenciones en la dimensión familia (Figura 43):

- Los niños con reintervenciones puntúan menos, en promedio, en la dimensión familia (64,6 vs. 79,8).
- Los niños de 6-7 años puntúan menos, en promedio, en la dimensión familia que los más pequeños (68,7 vs. 83,3).

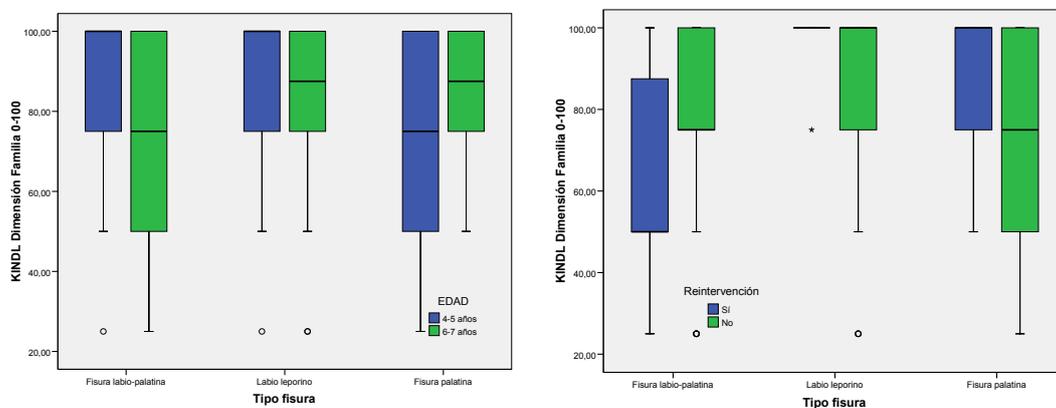


Figura 43. Dimensiones con significación estadística cuestionario KINDL según tipo fisura y grupo.

5. 2. 3. Cuestionario respondido por padres (KINDL-p)

El cuestionario KINDL-p fue respondido de forma satisfactoria y completa por todos los padres de niños fisurados.

Validez Interna

Para las 6 dimensiones que conforman la encuesta, el alfa de Cronbach oscila entre 0,7 y 0,8, valores elevados que junto con el alfa global de los 24 ítems juntos es de 0,931, lo que confirma la excelente validez de la encuesta KINDL-p como instrumento de medición de la CVRS del paciente (Tabla 39). El módulo de enfermedades crónicas también está bien medido por la escala (0,852).

DIMENSIÓN	α de Cronbach
Bienestar físico	0,799
Bienestar emocional	0,764
Autoestima	0,729
Familia	0,704
Amigos	0,699
Colegio	0,758
Módulo enf. crónicas	0,852

Tabla 39. Correlaciones entre dimensiones KINDL fisurados

Análisis de resultados

Los resultados globales observados mediante este cuestionario muestran valores altos por parte de los padres de los niños (media $80,44 \pm 12,57$) por lo que el impacto de las fisuras orofaciales percibido por los padres en la CVRS es bajo (Figura 44).

Si analizamos las distintas dimensiones de manera independiente, se observan valores reducidos en las dimensiones de autoestima (media $72,59 \pm 16,90$) y en el módulo de enfermedad crónica (media $72,10 \pm 17,88$) con una p-valor de Wilcoxon <0.01 con el resto de dimensiones (Tabla 40).

KINDL-p	N válido	Media	Desviación típica	Máximo	Mediana	Mínimo
KINDL-p global 0-100	171	80,44	12,57	100,00	81,25	45,00
KINDL-p Dimensión Bienestar físico 0-100	171	84,54	15,09	100,00	87,50	50,00
KINDL-p Dimensión Bienestar emocional 0-100	171	83,74	14,78	100,00	87,50	50,00
KINDL-p Dimensión autoestima 0-100	171	72,59*	16,90	100,00	75,00	25,00
KINDL-p Dimensión Familia 0-100	171	81,98	14,51	100,00	81,25	37,50
KINDL-p Dimensión Amigos 0-100	171	78,00	15,79	100,00	81,25	37,50
KINDL-p Dimensión Colegio 0-100	171	85,89	13,55	100,00	87,50	50,00
KINDL-p Módulo Enfermedad crónica 0-100	171	72,10*	17,88	100,00	75,00	29,17

Tabla 40. Cuestionario KINDL-p para padres de niños fisurados. * Significación estadística ($p < 0,05$).

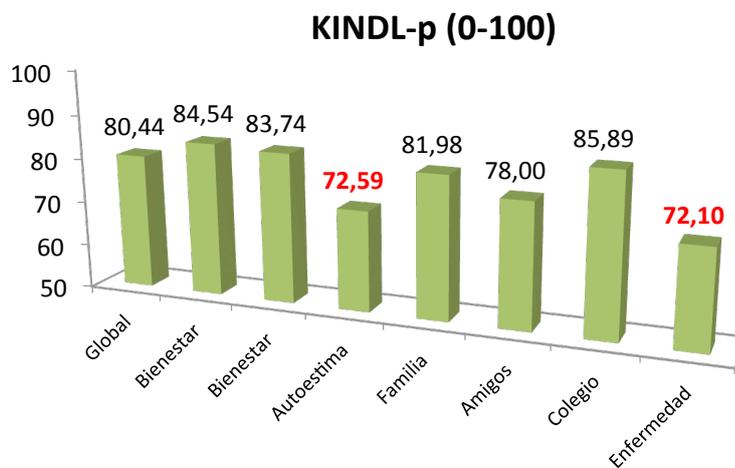


Figura 44. Dimensiones cuestionario KINDL-p para padres de niños fisurado.

El análisis multivariante para saber qué dimensiones están interrelacionadas entre sí detectó algunas combinaciones de factores que afectaban a la CV. En el caso del cuestionario de aplicación a los padres se observó que todas las dimensiones estaban positiva y altamente correlacionadas, sobre todo, las dimensiones del bienestar emocional, físico y la autoestima (Tabla 41).

Estos resultados, junto con los obtenidos en el cuestionario de aplicación a los niños, permiten concluir que los padres perciben mucho más interrelacionadas las dimensiones, es decir, perciben que la CV de sus hijos fisurados depende de la combinación de muchos factores. Sin embargo, los niños asocian su CV a menos aspectos, sobre todo la centran en los tándems Colegio-Enfermedad crónica y Autoestima-Bienestar emocional.

Rho de Spearman		KINDL-p Dimensión Bienestar físico	KINDL-p Dimensión Bienestar emocional	KINDL-p Dimensión Autoestima	KINDL-p Dimensión Familia	KINDL-p Dimensión Amigos	KINDL-p Dimensión Colegio
KINDL-p Dimensión Bienestar emocional	Coefficiente de correlación	0,785 (**)					
	Sig. (bilateral)	0,000					
KINDL-p Dimensión Autoestima	Coefficiente de correlación	0,742 (**)	0,703 (**)				
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000				
KINDL-p Dimensión Familia	Coefficiente de correlación	0,604 (**)	0,614 (**)	0,609 (**)			
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000			
KINDL-p Dimensión Amigos	Coefficiente de correlación	0,608 (**)	0,637 (**)	0,660 (**)	0,629 (**)		
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000		
KINDL-p Dimensión Colegio	Coefficiente de correlación	0,531 (**)	0,550 (**)	0,545 (**)	0,572 (**)	0,606 (**)	
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000	
KINDL-p Módulo Enfermedad crónica	Coefficiente de correlación	0,565(**)	0,566 (**)	0,578 (**)	0,623 (**)	0,679 (**)	0,581(**)
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000

Tabla 41. Correlaciones entre dimensiones KINDL-p. ** Correlación es significativa al nivel 0,01 (bilateral).

Tipo fisura

Al analizar los resultados con respecto al tipo de fisura, tanto en los resultados globales como en la mayoría de dimensiones no se encontraron diferencias significativas en las valoraciones de los padres (Tabla 42). Las únicas diferencias en la percepción sobre CV según el tipo de fisura se observaron en las dimensiones del bienestar emocional ($p < 0,029$) y amigos ($p < 0,030$) (Figura 45). Los padres de los

niños con fisura con componente labial (FLP y LL) evaluaron su bienestar emocional ($82,13 \pm 13,26$ y $82,59 \pm 14,24$ respectivamente) peor frente a la percepción de los padres de niños con FP ($87,01 \pm 16,81$). Resultados similares se obtuvieron al analizar la interacción social con amigos de los niños con FLP ($75,39 \pm 11,94$) y LL ($77,79 \pm 15,58$) frente a aquellos con FP aislada ($81,50 \pm 19,48$).

De estos resultados se puede concluir que los padres de los niños con fisuras orofaciales otorgaron una mayor relevancia al componente estético de la afectación labial que al componente funcional de la afectación palatina a la hora de valorar los niveles de CV de sus hijos. Así en el gráfico se observa que la calidad de vida percibida por los padres es peor en niños con FLP o LL que en niños con FP.

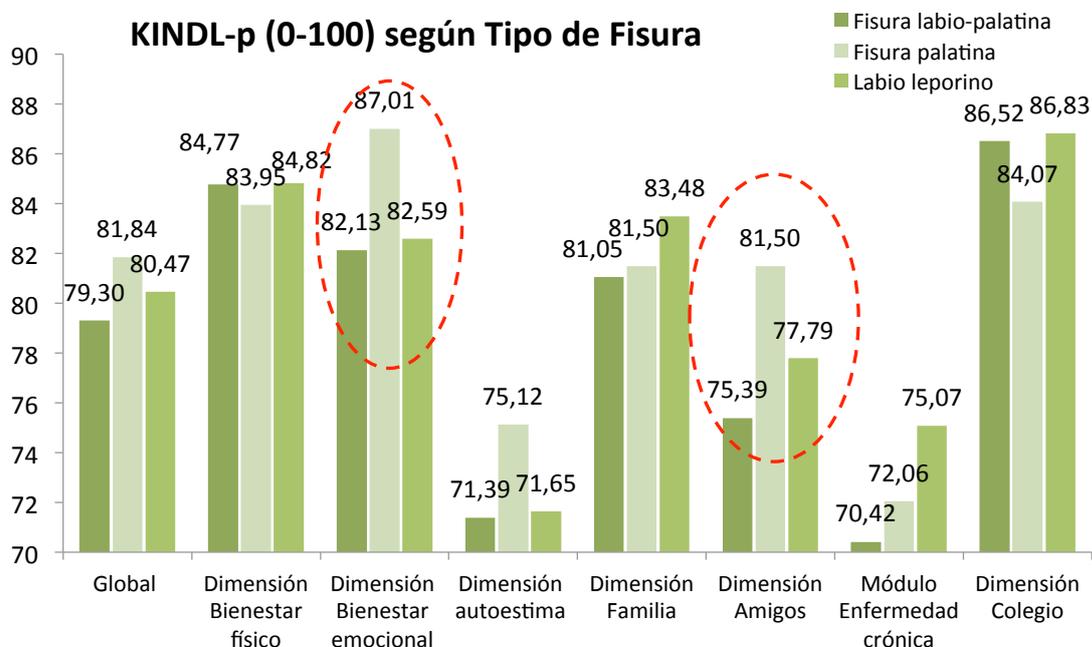


Figura 45. Dimensiones de cuestionario KINDL-p según tipo fisura.

Otros factores (edad, sexo, reintervención)

El análisis del resto de aspectos valorados (sexo, edad, y reintervenciones) no reflejó diferencias estadísticamente significativas en la percepción sobre la CV del niño fisurado ni de forma global ni en las distintas dimensiones (Figura 46, Tabla 42).

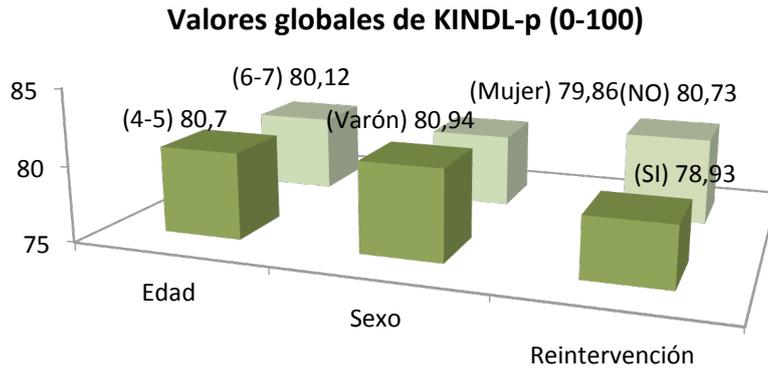


Figura 46. Valores globales de cuestionario KINDL-p según edad, sexo, reintervención.

KINDL-p		p-valor (prueba)							
		Dimensión Bienestar físico 0-100	Dimensión Bienestar emocional 0-100	Dimensión autoestima 0-100	Dimensión Familia 0-100	Dimensión Amigos 0-100	Dimensión Colegio 0-100	Enfermedad des crónicas 0-100	Global 0-100
NIÑOS FISURA	SEXO	0,728 (M-W)	0,372 (M-W)	0,836 (M-W)	0,806 (M-W)	0,747 (M-W)	0,827 (M-W)	0,493 (M-W)	0,749 (M-W)
	EDAD (≤5 años; > 5 años)	0,922 (M-W)	0,667 (M-W)	0,974 (M-W)	0,215 (M-W)	0,561 (M-W)	0,826 (M-W)	0,805 (M-W)	0,813 (M-W)
	TIPO DE FISURA	0,699 (K-W)	0,029* (K-W)	0,433 (K-W)	0,221 (K-W)	0,030* (K-W)	0,863 (K-W)	0,100 (K-W)	0,131 (K-W)
	REINTERVENCIÓN	0,666 (M-W)	0,766 (M-W)	0,727 (M-W)	0,282 (M-W)	0,786 (M-W)	0,243 (M-W)	0,256 (M-W)	0,499 (M-W)

Tabla 42. Significación estadística cuestionario KINDL-p por dimensiones y grupos.

Si se analizan las puntuaciones por sexo, edad y reintervenciones en cada tipo de fisura la única diferencia estadística que se aprecia es la FLP a nivel de reintervenciones en la dimensión familia:

- Los padres de los niños reintervenidos puntúan menos, en promedio, en la dimensión familia que los no reintervenidos (75,0 vs. 82,5) (Figura 47).

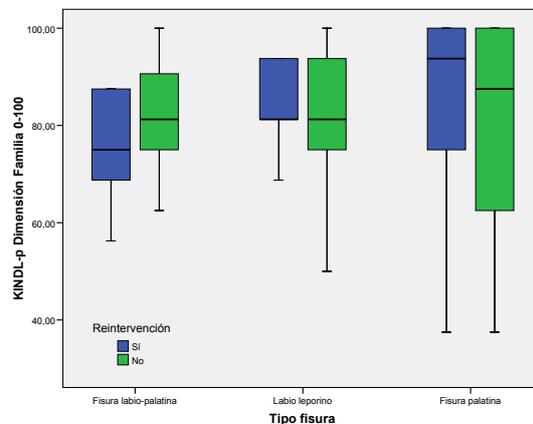


Figura 47. Dimensiones con significación estadística KINDL-p según tipo fisura y grupo

5. 2. 4. Comparación de las percepciones Kiddy-KINDL y KINDL-p.

Los resultados dados tanto por los niños fisurados como por sus padres sobre la percepción de la CV de los niños se analizan para comprobar el grado de concordancia entre estas percepciones mediante la prueba de comparación de distribuciones en muestras relacionadas de Wilcoxon (Tabla 43).

PRUEBA DE WILCOXON	p-valor
KINDL Dimensión Bienestar físico 0-100 – KINDL-p Dimensión Bienestar físico 0-100	0,306
KINDL Dimensión Bienestar emocional 0-100 - KINDL-p Dimensión Bienestar emocional 0-100	0,554
KINDL Dimensión autoestima 0-100 - KINDL-p Dimensión autoestima 0-100	0,002*
KINDL Dimensión Familia 0-100 - KINDL-p Dimensión Familia 0-100	0,586
KINDL Dimensión Amigos 0-100 - KINDL-p Dimensión Amigos 0-100	0,002*
KINDL Dimensión Colegio 0-100 - KINDL-p Dimensión Colegio 0-100	0,882
KINDL Módulo Enfermedad crónica 0-100 - KINDL-p Módulo Enfermedad crónica 0-100	0,002*
KINDL global 0-100 - KINDL-p global 0-100	0,047*

Tabla 43. Grado de concordancia entre percepciones Kiddy-KINDL y KINDL-p.

Cuando comparamos los resultados de los padres con los dados por los niños, los valores obtenidos indican diferencias significativas en las percepciones de los niños y de los padres en la valoración global ($p < 0,047$) y en las dimensiones de Autoestima ($p < 0,002$), Amigos ($p < 0,002$) y Enfermedad crónica ($p < 0,002$): en estas dimensiones los padres perciben la CV de su hijo fisurado peor de lo que la percibe el propio niño (Figura 48).

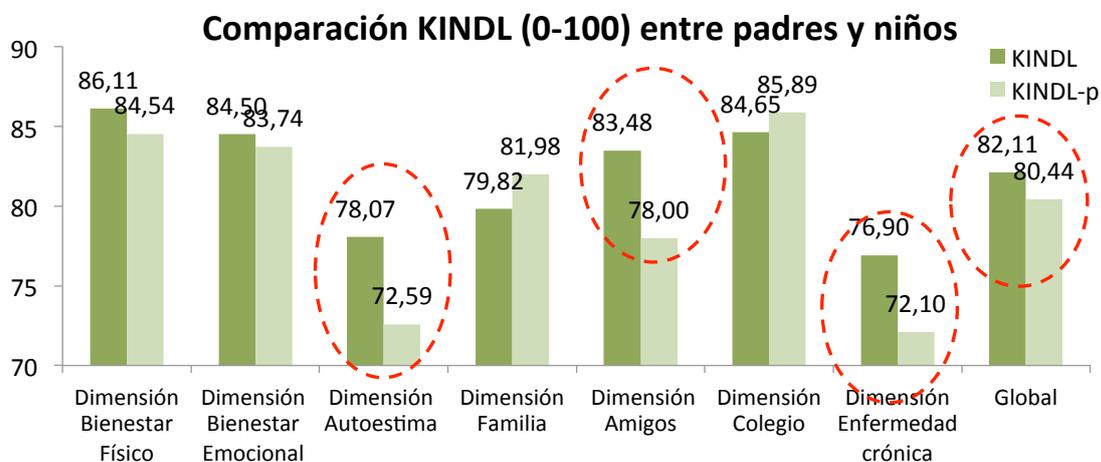


Figura 48. Comparación valores de kiddy-KINDL vs KINDL-p.

De manera similar se realizó el análisis según el tipo de fisura para comprobar si se produce mayor discrepancia en las percepciones en algún grupo (Tabla 44).

PRUEBA DE WILCOXON	p-valor			
	General	FLP	LL	FP
Dimensión Bienestar físico	0,306	0,419	0,709	0,575
Dimensión Bienestar emocional	0,554	0,437	0,295	0,316
Dimensión autoestima	0,002*	0,024*	0,017*	0,582
Dimensión Familia	0,586	0,315	0,569	0,717
Dimensión Amigos	0,002*	0,006*	0,015*	0,922
Dimensión Colegio	0,882	0,756	0,995	0,822
Módulo Enfermedad crónica	0,002*	0,058	0,968	0,001*
KINDL-p global	0,047*	0,141	0,036*	0,784

Tabla 44. Comparación kiddy-KINDL y KINDL-p. * Significación estadística (p<0,05).

Las pruebas de Wilcoxon revelan que las discrepancias en las percepciones sobre la CV entre niños y padres se dan principalmente (Figura 49):

- En el grupo de niños con LL para la valoración global (p <0,036) y para las dimensiones autoestima (p <0,017) y amigos (p <0,015)
- En el grupo de FP para el módulo de enfermedades crónicas (p <0,001).
- En el grupo de FLP para las dimensiones autoestima (p <0,024) y amigos (p <0,006).

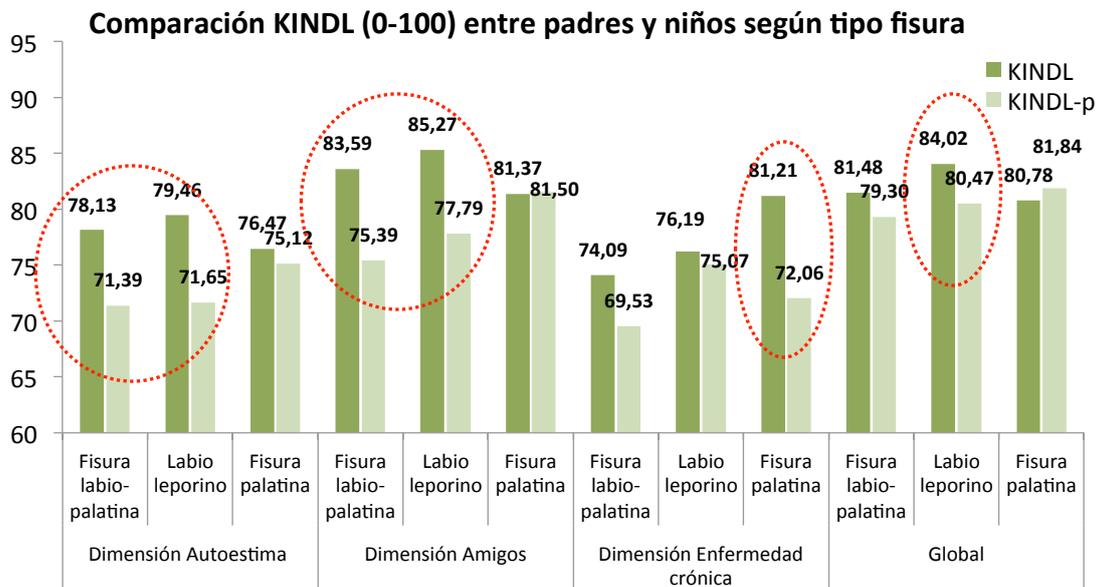


Figura 49. Comparación kiddy-KINDL y KINDL-p según tipo fisura.

5. 2. 5. Cuestionario C-OHIP 14

El cuestionario C-OHIP fue respondido de forma satisfactoria y completa por todos los niños fisurados y niños sanos controles.

Validez Interna

El alfa de Cronbach no es muy elevado para las dimensiones de *limitación de la función, discomfort psicológico e incapacidad social* (0,5-0,6) por lo que la escala utilizada no es del todo adecuada para medir estas dimensiones. Para el resto de dimensiones y como instrumento global (14 ítems), los valores de alfa son muy elevados (0,8-0,95), confirmando la excelente validez de la encuesta COHIP como instrumento de medición de la CV del paciente (Tabla 45).

DIMENSIÓN	α de Cronbach
Limitación de función	0,633
Dolor físico	0,806
Aflicción psicológica	0,931
Incapacidad física	0,887
Discomfort psicológico	0,492
Incapacidad social	0,576
Discapacidad	0,875
Global	0,924

Tabla 45. Comparación kiddy-KINDL y KINDL-p.

Análisis de resultados

Los resultados globales observados mediante este cuestionario más específico para problemas orales mostraron valores globales más altos en la población de niños con fisuras orofaciales (media $10,53 \pm 8,56$) por lo que mediante el C-OHIP el impacto de esta anomalía craneofacial en la CVRS es mayor que el observado con un cuestionario genérico como el KINDL (Tabla 46).

Al valorar las distintas dimensiones de manera independiente, se observó una mayor alteración de la CV en las dimensión de aflicción psicológica (media $3,29 \pm 2,73$), siendo ésta la que impacta más negativamente (Figura 50).

C-OHIP		OHIP global	OHIP Dimensión Limitación de la función	OHIP Dimensión Dolor físico	OHIP Dimensión Aflicción Psicológica	OHIP Dimensión Incapacidad Física	OHIP Dimensión Discomfort Psicológico	OHIP Dimensión Incapacidad social	OHIP Dimensión Discapacidad
Sano	N válido	186	186	186	186	186	186	186	186
	Media	5,01	0,47	1,39	1,41	0,47	0,54	0,63	0,56
	Desviación típica	7,49	1,07	2,01	2,07	1,13	1,01	1,20	1,32
	Máximo	26,00	5,00	8,00	8,00	4,00	4,00	5,00	6,00
	Mediana	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00
	Mínimo	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00
Fisurado	N válido	171	171	171	171	171	171	171	171
	Media	10,53	1,98	1,84	3,29	,99	1,83	1,36	1,22
	Desviación típica	8,56	2,04	1,94	2,73	1,47	1,80	1,52	1,72
	Máximo	30,00	7,00	6,00	8,00	5,00	6,00	5,00	6,00
	Mediana	10,00	2,00	2,00	4,00	,00	2,00	1,00	,00
	Mínimo	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00	0,00

Tabla 46. Cuestionario C-OHIP: niños sanos y fisurados. * Diferencia significativa ($p < 0,05$).

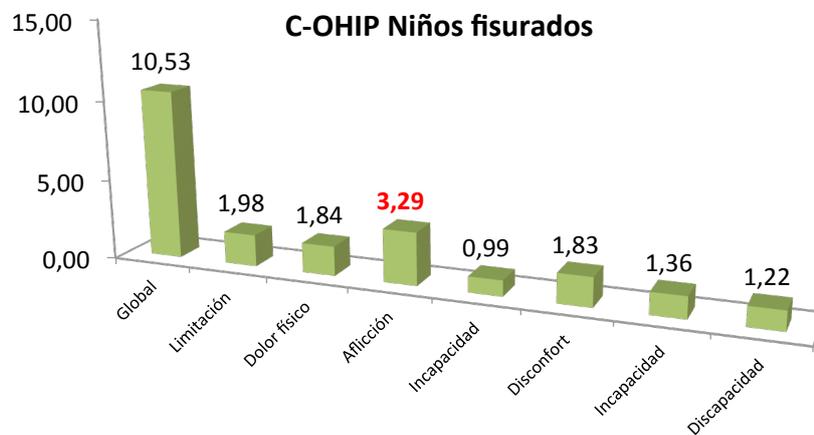


Figura 50. Dimensiones cuestionario C-OHIP niños fisurados.

Cuando comparamos con el grupo de referencia control, el niño fisurado difiere significativamente en su percepción de CV respecto del niño sano tanto en los valores globales (10,53 vs 5,01) como en todas las dimensiones del cuestionario C-OHIP, por lo que los niños fisurados percibieron peor CV (Figura 51).

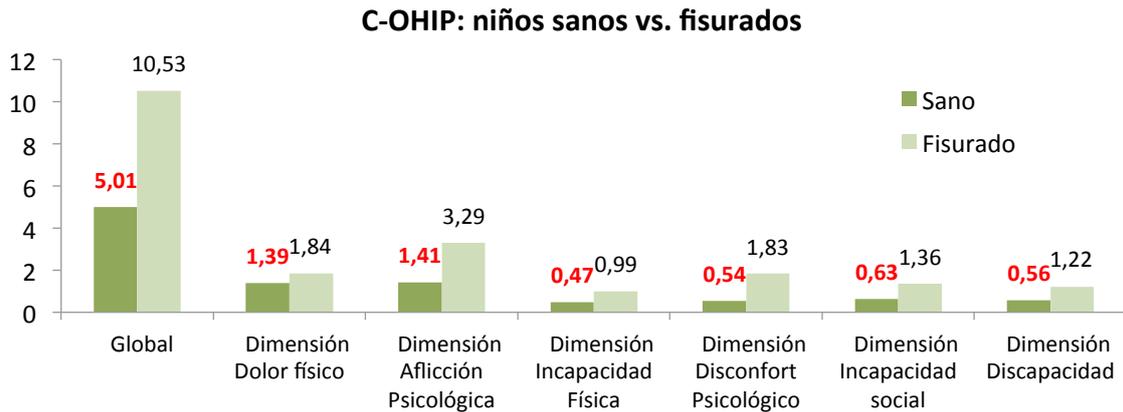


Figura 51. Cuestionario C-OHIP niños fisurados vs niños sanos.

Además de las dimensiones, se analizaron de forma independiente las diferencias existentes en 3 ítems concretos por su interés especial:

- Limitación funcional: ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes?
- Discomfort psicológico: ¿se ha sentido nervioso debido a problemas con sus dientes o boca?
- Incapacidad social: ¿ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos y familia por problemas con sus dientes o boca?

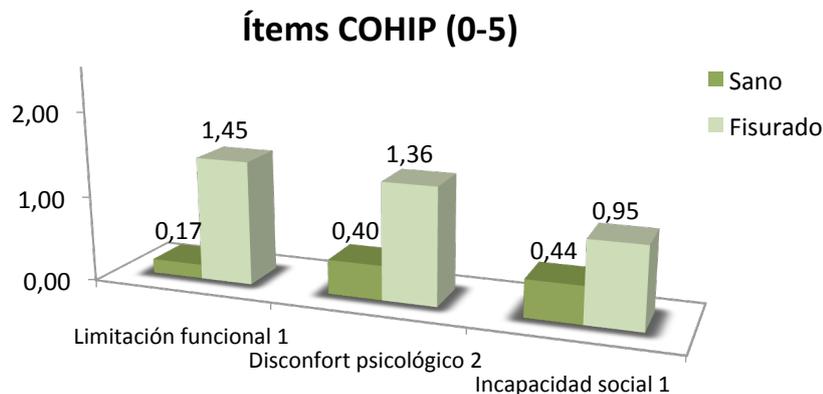


Figura 52. Cuestionario C-OHIP niños fisurados vs niños sanos.

Los resultados en estos ítems reflejaron la existencia de diferencias significativas en cuestiones tan relevantes como son la pronunciación o la apariencia física, empeorando su CV respecto a niños sanos (Figura 52).

El análisis multivariante para saber qué dimensiones están interrelacionadas entre sí detectó algunas combinaciones de factores que afectaban a la CV. Se observó una marcada interrelación entre las distintas dimensiones, indicando la importancia de cada uno de los diferentes aspectos (físico, psicológico y social) en la valoración de la CV. Principalmente se observó una alta correlación positiva entre las dimensiones “dolor físico” y “limitación de la función” (0,662), entre “dolor físico” y “aflicción psicológica” (0,632) y entre “dolor físico” y “discomfort psicológico” (0,618) (Tabla 47).

Rho de Spearman		Dimensión Limitación de la función	Dimensión Dolor físico	Dimensión Aflicción Psicológica	Dimensión Incapacidad Física	Dimensión Discomfort Psicológico	Dimensión Incapacidad social
Dimensión Dolor físico	Coefficiente de correlación	0,662 (**)					
	Sig. (bilateral)	0,000					
Dimensión Aflicción Psicológica	Coefficiente de correlación	0,523 (**)	0,632 (**)				
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000				
Dimensión Incapacidad Física	Coefficiente de correlación	0,525 (**)	0,532 (**)	0,522 (**)			
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000			
Dimensión Discomfort Psicológico	Coefficiente de correlación	0,523 (**)	0,618 (**)	0,499 (**)	0,518 (**)		
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000		
Dimensión Incapacidad social	Coefficiente de correlación	0,489 (**)	0,517 (**)	0,558 (**)	0,539 (**)	0,551 (**)	
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000	
Dimensión Discapacidad	Coefficiente de correlación	0,398 (**)	0,402 (**)	0,423 (**)	0,425 (**)	0,464 (**)	0,382 (**)
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000	0,000

Tabla 47. Correlación entre dimensiones de COHIP. ** La correlación es significativa al nivel 0,01 (bilateral).

Tipo de fisura

El tipo de fisura resultó ser un factor influyente en la percepción de la calidad de vida del niño fisurado. Según las pruebas dos a dos de Mann-Whitney, tanto en la limitación de la función ($p < 0,001$) como en el discomfort psicológico ($p < 0,011$) los niños con fisura palatina aislada o asociada (FP y FLP) percibieron peor su CV que los niños con LL; sin embargo, en la aflicción psicológica ($p < 0,003$) son los niños con FLP o LL los que percibieron peor CV que los niños con FP aislada (Figura 53).

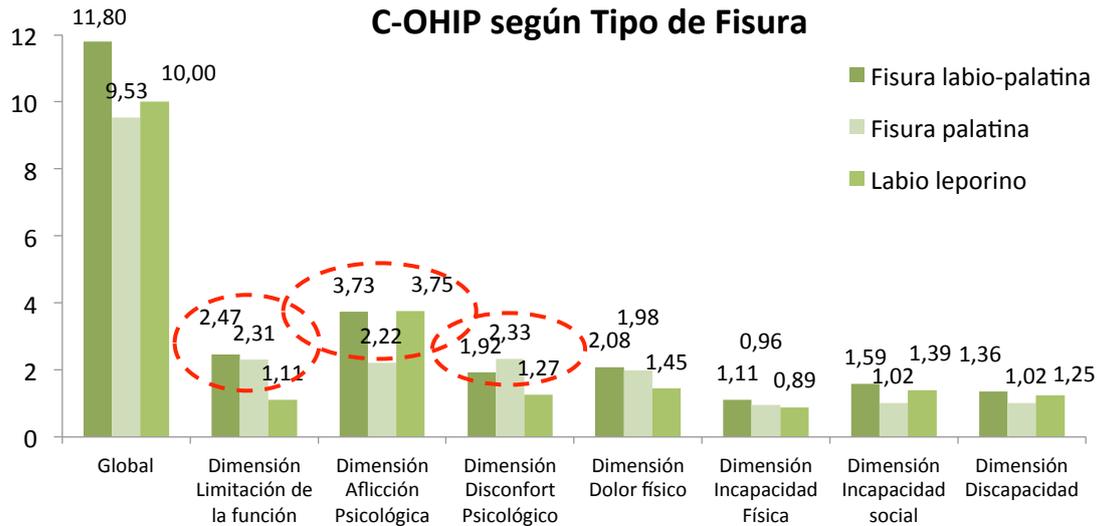


Figura 53. Cuestionario C-OHIP niños fisurados vs niños sanos.

C-OHIP		p-valor (prueba)							OHIP global
		Dimensión Limitación de la función	Dimensión Dolor físico	Dimensión Aflicción Psicológica	Dimensión Incapacidad Física	Dimensión Discomfort Psicológico	Dimensión Incapacidad social	Dimensión Discapacidad	
FISURA		0,000* (M-W)	0,005* (M-W)	0,000* (M-W)	0,000* (M-W)	0,000* (M-W)	0,000* (M-W)	0,000* (M-W)	0,000* (M-W)
NIÑOS FISURADOS	SEXO	0,835 (M-W)	0,376 (M-W)	0,503 (M-W)	0,284 (M-W)	0,550 (M-W)	0,972 (M-W)	0,164 (M-W)	0,825 (M-W)
	EDAD (≤5 años; > 5 años)	0,208 (M-W)	0,894 (M-W)	0,097 (M-W)	0,658 (M-W)	0,425 (M-W)	0,411 (M-W)	0,434 (M-W)	0,324 (M-W)
	TIPO DE FISURA	0,000* (K-W)	0,116 (K-W)	0,003* (K-W)	0,487 (K-W)	0,011* (K-W)	0,068 (K-W)	0,306 (K-W)	0,209 (K-W)
	REINTERVENCIÓN	0,051 (M-W)	0,345 (M-W)	0,219 (M-W)	0,533 (M-W)	0,459 (M-W)	0,158 (M-W)	0,987 (M-W)	0,279 (M-W)

Tabla 48. Significación estadística cuestionario COHIP por dimensiones y grupos.

Otros factores (edad, sexo, reintervención)

El sexo y las reintervenciones no afectan a la percepción sobre CV del niño fisurado según el C-OHIP (Tabla 48). La única diferencia que se da es un mayor promedio de los valores C-OHIP de la dimensión Discapacidad entre las niñas y los niños con LL (1,90 vs. 0,89) (Figura 54).

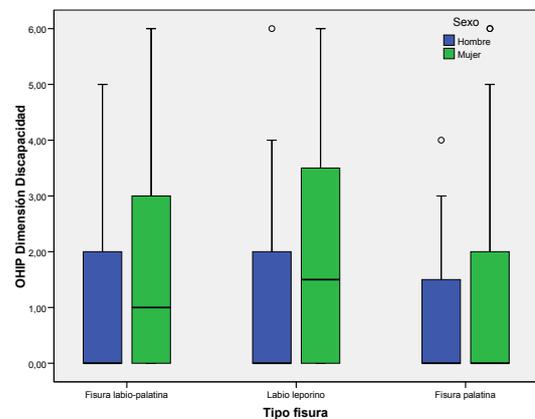


Figura 54. Dimensiones con significación estadística COHIP según tipo fisura y grupo.

5. 2. 6. Cuestionario impacto familiar IOFS

Todos los padres de los pacientes respondieron todas los apartados de la escala. Las puntuaciones medias de las familias examinadas generalmente varía entre 3 y 4, indicando así un mínimo impacto tanto global como en todas las dimensiones para la mayoría de las familias de niños con FL/P (Tabla 49).

IOFS	N válido	Media	Desviación típica	Máximo	Mediana	Mínimo
Dimensión de carga económica	171	3,58	,49	4,00	3,75	2,50
Dimensión de impacto familiar/social	171	3,42	,35	4,00	3,44	2,56
Dimensión estrés personal	171	3,26	,43	4,00	3,33	2,00
Dimensión dominio	171	2,88	,73	4,00	3,00	1,20
Impacto total	171	3,29	,30	3,94	3,33	2,48

Tabla 49. Dimensiones cuestionario IOFS (1-Mayor impacto; 4- Menor impacto).

Las puntuaciones las dimensiones de carga económica y de impacto familiar/social fueron las más altas mientras que los valores con un mayor impacto familiar se obtuvieron en la dimensión dominio seguida del estrés personal (Figura 55).

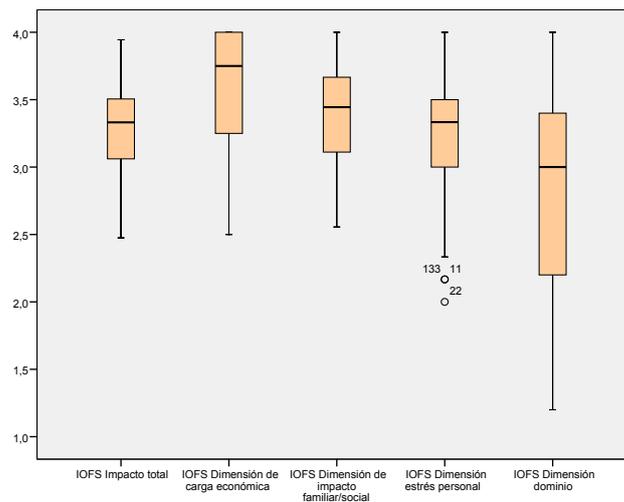


Figura 55. Valores dimensiones IOFS.

El análisis de correlación multivariante mostró la existencia de varias dimensiones interrelacionadas de forma significativa para detectar combinaciones de factores que afectan a la CV. Las correlaciones más elevadas se dieron entre la dimensiones “estrés personal” e “Impacto familiar/ social” (0,626), es decir, a mayor estrés, mayor impacto familiar y viceversa. Se establece, además, una correlación inversa entre la dimensión “dominio” y la dimensión “Impacto familiar/ social” (-0,189), es decir, a menor dominio, mayor impacto familiar (Tabla 50).

Rho de Spearman		IFS Dimensión de impacto familiar/social	IFS Dimensión estrés personal	IFS Dimensión dominio	IFS Dimensión de carga económica
IFS Dimensión estrés personal	Coefficiente de correlación	0,626(**)			
	Sig. (bilateral)	0,000			
	N	171			
IFS Dimensión dominio	Coefficiente de correlación	-0,189(*)	-0,059		
	Sig. (bilateral)	0,013	0,442		
	N	171	171		
IFS Dimensión de carga económica	Coefficiente de correlación	0,365(**)	0,464(**)	-0,054	
	Sig. (bilateral)	0,000	0,000	0,482	
	N	171	171	171	

Tabla 50. Correlación entre dimensiones. ** La correlación es significativa al nivel 0,01 (bilateral). * La correlación es significativa al nivel 0,05 (bilateral).

Tipo fisura

De forma general no se encontraron diferencias estadísticamente significativas en el impacto total según el tipo de fisura. Sin embargo, se observaron diferencias significativas en los valores de todas las dimensiones de la escala IOFS según tipo de fisura. En general, según las pruebas dos a dos de Mann-Whitney, se observa que las familias de niños con FLP o con FP perciben un mayor impacto en todas dimensiones (carga económica, impacto familiar/social y estrés personal) que los padres de niños con LL, excepto en la dimensión dominio, donde los padres de niños con LL o FLP perciben mayor impacto que los padres de niños con FP (Figura 56, Tabla 51).

IOFS (p-valor)	Dimensión de carga económica	Dimensión de impacto familiar/social	Dimensión estrés personal	Dimensión dominio	Impacto total
TIPO FISURA	0,000*	0,000*	0,017*	0,027*	0,052

Tabla 51. Significación estadística dimensiones escala IOFS.

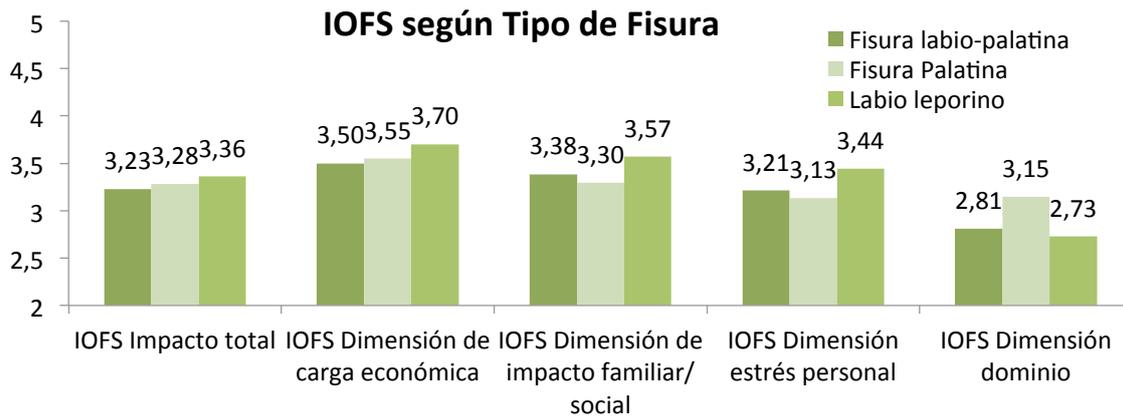


Figura 56. Valores de escala IOFS según tipo de fisura.

Sexo

El sexo del niño no presenta ninguna relevancia significativa en el impacto total ni en ninguna de las diferentes dimensiones del IOFS (Tabla 52). Al analizar el sexo para cada tipo de fisura, no se observaron diferencias en las familias de niños con LL ni FLP. Solo en la FP, se percibe mayor impacto global entre los hombres (3,20 vs. 3,33) ($p < 0,028$) (Figura 57).

IOFS	p-valor				
	Dimensión de carga económica	Dimensión de impacto familiar/social	Dimensión estrés personal	Dimensión dominio	Impacto total
SEXO	0,396	0,670	0,633	0,771	0,865
EDAD (≤5 años; >5 años)	0,149	0,021*	0,397	0,661	0,361
REINTERVENCIÓN	0,768	0,334	0,380	0,119	0,645

Tabla 52. Significación estadística cuestionario IOFS por dimensiones y grupos.

Edad

La edad del niño (preescolar vs escolar) tiene poca repercusión sobre la familia. Solamente en la dimensión familiar/social se percibe un mayor impacto en la familia de los niños de 4 a 5 años con un 3,38 de media frente a las familias de los niños mayores de 5 años con un 3,46 de media ($p < 0,021$) (Tabla 52).

Según el tipo de fisura, no se observaron diferencias en las familias de niños con LL ni FP. Solo en la FLP el estrés personal tiene más impacto en niños mayores de 5 años (3,09 vs. 3,37) con $p < 0,032$ (Figura 57).

Reintervención quirúrgica

La necesidad de reintervención quirúrgica no presentó ninguna influencia sobre el impacto familiar en ninguna de sus dimensiones (Tabla 52). Según el tipo de fisura, no se observaron diferencias en las familias de niños con FLP ni FP. Solo en las familias de niños con LL, el estrés personal (3,02 vs. 3,50) ($p < 0,004$) y el impacto familiar/social (3,33 vs. 3,65) ($p < 0,042$) se percibe mayor de forma estadísticamente significativa si ha habido reintervención (Figura 57).

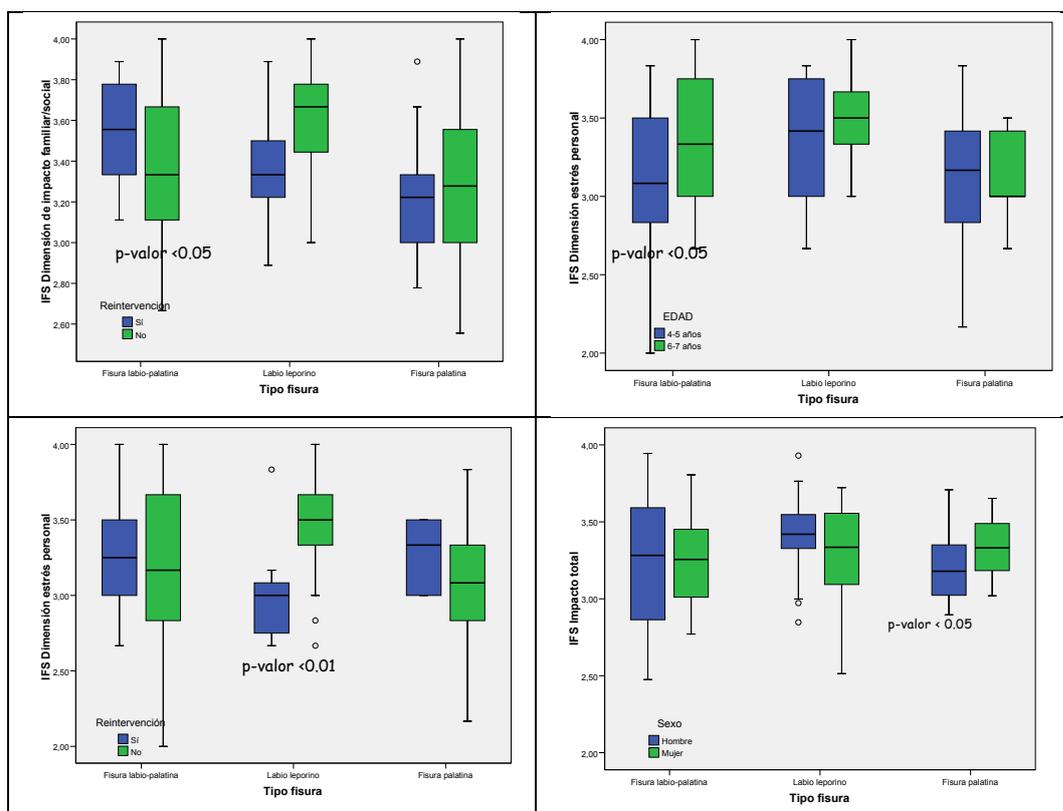


Figura 57. Dimensiones con significación estadística de IOFS según tipo de fisura y grupo.



VI

DISCUSIÓN

6. DISCUSIÓN

El manejo y tratamiento de los pacientes con fisuras orofaciales constituye un proceso complejo y largo que implica múltiples procedimientos y la necesidad de colaboración de una gran variedad de especialistas. Los profesionales encargados de prestar esta atención sanitaria tienen la obligación de evaluar el éxito de sus prácticas y tomar las medidas correctivas necesarias donde se encuentren deficiencias. Tales esfuerzos deben constituir un ciclo continuo controlado mediante auditorías clínicas periódicas. La *American Cleft-Palate Association* (ACPA) en su estudio para protocolizar y poder comparar resultados intercentro en el manejo de niños con fisuras (*Americleft*) establece la importancia de integrar e incorporar los resultados en varias disciplinas como parte de la valoración global (resultados quirúrgicos, ortodónticos, resultados en el habla y audición y resultados sobre CVRS)²⁰⁶.

6. 1. RESULTADOS DEMOGRÁFICOS

Durante el periodo de 10 años incluidos en este estudio se atendieron un total de 460 nuevos casos de FL/P. La procedencia de un número elevado de pacientes de áreas diferentes a nuestra área de referencia impide la posibilidad de valorar la incidencia real de esta patología en el Sur de España.

La incidencia según el tipo de fisura varía de forma importante según diferentes autores dependiendo de la localización geográfica y la etnia de los pacientes. En nuestro estudio la afectación labial y palatina es el hallazgo más frecuente (43,9%), seguido de la afectación aislada labial (30,2%) y palatina (25,9%). Estos resultados son consistentes con otros autores europeos, así Jensen y cols²⁰⁷ encuentran en la población danesa 39% de casos de FLP, 34% de LL y 27% de FP, valores muy similares a los de nuestro estudio. En España, García-Romero y cols²⁰⁸ también destacan el predominio de FLP en pacientes atendidos de Aragón y La Rioja (54% de los casos).

La mayoría de autores coinciden en señalar una relación hombres/mujeres muy similar con respecto a la aparición de fisuras orofaciales de forma global²¹. En nuestro estudio se observa un ligero predominio de los varones (54% vs 46%), lo que puede ser explicado por el infratratamiento de formas mínimas de defectos palatinos y el posible desvío de pacientes a otros Centros de referencia.

La distribución por géneros de los diferentes subtipos de fisuras muestra un predominio masculino en los casos de LL \pm FP (ratio 1,5) mientras que la FP aislada es más frecuente en el sexo femenino (ratio 1,74), resultados acordes con los presentados en pacientes caucásicos en la literatura científica²⁰⁹. La existencia de estudios embriológicos que sugieren un origen etiopatogénico diferente en las fisuras labiales aisladas o asociadas a fisuras del paladar primario (LL \pm FP) y en las fisuras del paladar secundario (FP aisladas) junto con la identificación de genes ligados al cromosoma X implicados en la patogénesis de la FP pudieran explicar las diferencias de prevalencia asociadas al género.

La frecuencia de niños con defectos congénitos asociados (síndrómicos y malformaciones aisladas) varía de forma amplia en revisiones previas, oscilando entre un 3,8% en el estudio de Jensen en Dinamarca²⁰⁷ hasta 64% presentado por Wyszynski²¹⁰. La mayoría de autores señalan una prevalencia de malformaciones asociadas entre el 20 y el 39%. En nuestro estudio el porcentaje de malformaciones observado ha sido del 16,9%, inferior al 34% presentado por Calzolari en el estudio EUROCAT²¹¹. Las anomalías aisladas más frecuentes fueron las cardiopatías congénitas seguidas de los defectos osteomusculares, similar a lo señalado por Rodríguez Dehli en su estudio en Asturias²¹² y por Calzolari en el global del estudio EUROCAT²¹¹.

La exposición prenatal a determinados tóxicos como alcohol o benzodiazepinas se ha asociado con un mayor riesgo de tener un niño con fisura²¹³. En nuestro estudio la mayoría de pacientes (96,1%) no presentaron esta exposición, de tal manera que la evaluación de factores de riesgo tóxicos y la posible relación con datos perinatales no mostró ninguna asociación significativa.

El porcentaje de pacientes con una historia familiar positiva para fisuras orofaciales en nuestro estudio ha sido de un 12,2%. La existencia de antecedentes familiares de fisura ha sido ampliamente señalada en la literatura. Calzolari y cols²¹⁴ encontraron que el 11,4% de los pacientes tenían una historia familiar para esta malformación, cifras muy similares a las de nuestro estudio. El porcentaje tan significativo de casos en otros miembros de la familia apoya el carácter multifactorial y el papel hereditario en la etiología de estas patologías.

6. 2. PROTOCOLOS DE TRATAMIENTO.

No existe un protocolo de tratamiento de las fisuras bien establecido. La ausencia de adecuada evidencia científica para la selección de un protocolo queda reflejada en la gran diversidad de prácticas existentes en Europa para el tratamiento primario de una FLP unilateral completa. En una encuesta realizada dentro del proyecto Eurocleft, Shaw y cols⁵¹ identificaron 194 protocolos diferentes usados en 201 centros con 17 secuencias quirúrgicas empleadas para el cierre de la fisura, demostrando la ausencia de criterios que indiquen cuáles son las mejores prácticas. Cabe destacar que el protocolo empleado en nuestro centro de cierre de la FLP en dos intervenciones (queiloplastia en un primer tiempo seguida de una segunda intervención para el cierre conjunto de paladar duro y paladar blando) es el empleado por el 42,8% de los equipos europeos encuestados, siendo la secuencia más usada.

Por ello la Comisión Europea y la ACPA han desarrollado proyectos para establecer unos estándares de calidad en el tratamiento de la FL/P (proyectos Eurocleft⁵¹ y Americleft²⁰⁶). El proyecto Eurocleft establece la necesidad de una adecuada organización y estructuración de las políticas para el tratamiento de las fisuras orofaciales: mientras países más pequeños como Suecia, Noruega o República Checa poseen centros de referencia nacionales o regionales para el tratamiento de estos casos, otros más grandes como Francia, Alemania, España o Italia realizan su tratamiento de forma independiente en múltiples centros hospitalarios. Esta descentralización da lugar a la atención de un número reducido de casos, lo cual puede estar asociado con resultados deficientes.

Las principales guías de tratamiento europeas y americanas recomiendan que cada cirujano debe realizar un mínimo de 30-50 intervenciones primarias en fisurados por año²¹⁵⁻²¹⁷. En nuestro caso la media de cirugías durante el periodo de estudio de 10 años es superior a la cifra de 70 intervenciones/año realizadas principalmente por dos cirujanos. En una encuesta realizada por Gonzalez-Landa sobre el tratamiento de la FL/P en España, solo el 26% de los centros intervienen más de 30 casos al año con un 36,8% de cirujanos operando menos de 10 casos primarios al año²¹⁸. En el Reino Unido, una auditoría realizada para valorar los estándares de calidad en la atención de los pacientes fisurados (*Clinical Standards Advisory Group CSAG*) reveló que la fragmentación y descentralización en la atención de los pacientes fisurados suponía una merma en la calidad de la atención. Como resultado, el gobierno

estableció centros de referencia con equipos especializados formados por 2 ó 3 cirujanos y con un mínimo de 40 nuevos casos por año²¹⁹⁻²²⁰.

Numerosas técnicas quirúrgicas para el tratamiento de las fisuras han sido descritas sin que exista un consenso científico de cuáles son las que presentan una mayor tasa de éxito y un menor número de complicaciones. En nuestro centro la técnica preferida para la queiloplastia es la técnica de rotación-avance de Millard (82,3% de las queiloplastias) seguida de la técnica de los colgajos triangulares de Tennison-Randall (9,5% de los casos). La técnica de Millard es el procedimiento más aceptado y realizado actualmente para el tratamiento del LL. La edad media recomendada para el cierre de la fisura labial está entre los 3 y 6 meses y siempre antes del año (recomendaciones de la ACPA⁶). En nuestra muestra la edad media a la que realizamos este procedimiento es de 5,33 meses con una mediana de 6 meses.

La edad de cierre de las FP tiene un significativo efecto sobre el habla. El cierre temprano del paladar (antes de los dos años) permite una adecuada adquisición del habla al realizarse antes de que se inicie²²¹. En contraste, la reparación del paladar duro de forma diferida o tardía teóricamente permite un adecuado crecimiento maxilofacial ya que el crecimiento transversal no se completa hasta los 5 años^{222,223}. Esto ha dado lugar al desarrollo de diferentes protocolos de tratamiento en diferentes instituciones ya que el momento más adecuado para el cierre del paladar permanece científicamente sin confirmar. Sin embargo, como los mejores resultados en habla se obtienen cuando el cierre se realiza cerca de la edad de inicio del lenguaje, la mayoría de autores que realizan el cierre en un solo tiempo recomiendan realizarlo entre los 6 y 12 meses y siempre antes de los 18 meses para no alterar la normal adquisición del habla^{6,45,224,225}.

En la cirugía de las FP el procedimiento más empleado en nuestro centro es la técnica de Veau-Wardill-Kilner (46,4%) seguido de Von Langenbeck (43,1%), con un predominio de la primera en las fisuras completas y de la segunda en las fisuras incompletas. La edad media de nuestros pacientes es de 17,5 meses con una mediana de 18 meses. Estas cifras, en el límite de las recomendaciones existentes para la realización de la cirugía del paladar, pueden ser explicadas por las demoras existentes en las listas de espera quirúrgicas en la sanidad pública, por el alto volumen de pacientes así como por el retraso en la derivación de pacientes procedentes de otros hospitales.

En general las complicaciones quirúrgicas inmediatas postoperatorias en la cirugía del paciente fisurado son poco frecuentes y de escasa gravedad²²⁶⁻²²⁸. En nuestro estudio la incidencia global de complicaciones es del 2,7%, siendo más frecuentes en la cirugía del paladar que en la cirugía labial (3,6 vs 1,7%). La dehiscencia de la sutura, hemorragia necrosis del colgajo y la infección constituyen las principales complicaciones observadas en nuestros pacientes.

La tendencia actual en los centros especializados de tratamiento es reducir al mínimo la estancia media de ingreso para reducir los costes económicos y evitar la aparición de infecciones nosocomiales y iatrogenias. En general la mayoría de autores como Lees y Pigot²²⁶ recomiendan una hospitalización de 3 días en el caso de la cirugía labial y de 5 días para los casos de reparación del paladar aunque en algunos casos se habla de 2 días²²⁹ o incluso estancias de 24 horas para determinados casos seleccionados²³⁰⁻²³¹. La estancia media de ingreso de nuestros pacientes es muy superior a estas cifras tanto en las queiloplastias (estancia media de 6 días) como en las cirugías del paladar (media de 9,3 días). Las posibles causas que justifican estas estancias más prolongadas pueden ser el hecho de que muchos pacientes sean de localidades distantes al centro hospitalario, por lo que se aboga por ingresos de mayor duración para controlar posibles complicaciones locales o sistémicas. Otra posible causa es el hecho de que en nuestro estudio hemos incluido todos los pacientes sin eliminar aquellos casos sindrómicos o con patologías asociadas que requieren estancias más largas (estancia hospitalaria máxima de 22 días).

6. 3. COMPLICACIONES Y SECUELAS DE LA CIRUGÍA

El objetivo principal de la cirugía reparadora del labio fisurado es conseguir una apariencia aceptable del labio superior y nariz desde un punto de vista funcional y estético²³². El manejo quirúrgico de la fisura labial generalmente no requiere de grandes cirugías de secuelas aunque cirugías menores para correcciones del bermellón o la cicatriz a veces son necesarias²³³. Sin embargo, los métodos para determinar la severidad del caso y valorar los resultados son todavía muy subjetivos, lo que dificulta la comparación entre centro. El mayor reto en la cirugía reparadora de la fisura labial es lograr una adecuada corrección de la deformidad nasal, lo cual implica la realización de cirugías secundarias a edades mayores con gran frecuencia.

Un gran número de factores se han asociado a la aparición de secuelas quirúrgicas palatinas, incluyendo el tipo de fisura, la técnica empleada, la anchura de la fisura, la edad de realización de la cirugía, la experiencia del cirujano o la ausencia de un adecuado control postoperatorio²³⁴. Sin embargo, según un reciente metaanálisis²³⁵, el único factor encontrado con repercusión significativa en la aparición de fístulas es el tipo de fisura. Estos hallazgos son comparables a los resultados de nuestro estudio en los que existe un mayor riesgo de aparición de fístulas en los casos de FP completas frente a los casos incompletos.

La incidencia de fístulas palatinas oscila, según la literatura, entre el 0-38% aunque los estudios más significativos y recientes la cifran en el 10-20%²³⁶⁻²³⁷. En nuestro estudio la incidencia de fístulas postoperatorias sintomáticas es del 8,2%, cifras comparables a las observadas en otros estudios. Hardwicke y cols²³⁵ recientemente señalan una incidencia media global del 8,6% sobre 44 estudios que incluían 9.294 pacientes.

La localización más frecuente para la aparición de fístulas es la unión del paladar blando y el paladar duro²³⁸. Se han asociado varios factores para explicar esta causalidad tales como la tensión existente en un punto donde se produce la transición entre la musculatura y paladar duro. En nuestro estudio se confirman estos hallazgos, con un 75,7% de fístulas en dicha localización. Algunos autores como Helling y cols²³⁹ en un estudio sobre 31 pacientes combinando la palatoplastia de Furlow con una matriz dérmica acelular (Alloderm) en la zona central unión del paladar han presentado porcentajes de fístulas de solo el 3%²⁴⁰.

El cierre completo del esfínter velofaríngeo se considera uno de los mejores indicadores de resultado de la cirugía sobre el paladar fisurado. Al igual que ocurre con la incidencia de las fístulas palatinas, diferentes centros han presentado cifras muy variables de la necesidad de cirugía secundaria para la IVF persistente²⁴¹⁻²⁴³. Mientras que algunos estudios hablan de que ningún paciente ha requerido cirugía para corregir la IVF, otros han indicado cifras de hasta el 30%. El tipo y severidad de la fisura así como la técnica quirúrgica empleada son algunos de los factores que pueden ser la explicación para estas oscilaciones tan marcadas. El bajo porcentaje de intervenciones por IVF observado en nuestros pacientes (9,2%) implica un resultado satisfactorio sobre el mecanismo velofaríngeo de las técnicas empleadas de palatoplastia en nuestro centro.

Esta revisión de la actividad de la Unidad Funcional del Fisurado muestra altos niveles de calidad en la atención de los niños fisurados en nuestra área de referencia. Aunque hay múltiples limitaciones y sesgos que dificultan la comparación de resultados entre centros individualmente (inclusión de fistulas del paladar primario, exclusión de fistulas asintomáticas, tiempo seguimiento, pacientes sindrómicos, etc.), los resultados relativamente satisfactorios observados en nuestro estudio pueden ser atribuidos a varios factores como la protocolización del tratamiento, el volumen de paciente tratados por un número reducido de cirujanos o la estrategia de trabajo multidisciplinar.

6. 4. CALIDAD DE VIDA Y FISURA LABIO-PALATINA

Las fisuras orofaciales constituyen una de las anomalías congénitas más comunes. En la mayoría de estudios sobre individuos con FL/P, la valoración de los resultados terapéuticos han sido objetivamente determinados por los profesionales sanitarios mediante mediciones anatómicas y radiológicas, fotografías clínicas y modelos dentales²⁴⁴.

Más recientemente, el interés se ha centrado en la percepción individual del impacto de las fisuras y su tratamiento. Este nuevo abordaje pone el foco en la paciente como un “todo” en términos de bienestar físico, psicológico y social²⁴⁵.

Los hallazgos de los estudios de CVRS son a veces inconsistentes, y se ha sugerido que esto es debido en parte a las diferencias existentes entre estudios en lo referente a la población de pacientes, los instrumentos de medida empleados y al diseño del estudio³.

Actualmente existe una falta de instrumentos de medida de CVRS específicos para pacientes con fisuras orofaciales validados, fiables y sensibles. Algunos autores como Piombino²⁴⁶ o Patjanasoontorn²⁴⁷ han realizado proyectos para desarrollar herramientas específicas pero éstas no han sido validadas internacionalmente. Klassen y cols²⁴⁸ en una revisión sistemática sobre CVRS en niños con FL/P han identificado 29 cuestionarios utilizados para la medición de la CV, siendo el instrumento KINDL uno de los más empleados. En la misma línea, Eckstein y cols²⁴⁹ han identificado 5 instrumentos desarrollados o adaptados para su uso en niños con FL/P, siendo uno de ellos el COHIP. La tendencia actual en el manejo de la salud infantil es incluir la perspectiva tanto del niño como de su familia.

Este estudio proporciona datos iniciales sobre CVRS, CVRSO e impacto familiar de niños con fisuras orofaciales en edades tempranas (4-7 años): 171 niños con FL/P y sus familias son estudiados mediante una combinación de 2 instrumentos especialmente desarrollados para analizar la CVRS en niños (KINDL, COHIP) y 1 instrumento para detectar impactos en el funcionamiento familiar (IOFS). El tamaño de la muestra nos permite realizar el estudio por subgrupos, de manera que los niños han sido separados tres grupos, dependiendo del tipo de fisura, según presenten alteraciones estéticas (LL), funcionales (FP) o una combinación de ambas (FLP).

6. 5. CVRS GENERAL (CUESTIONARIO KINDL)

Los cuestionarios genéricos de CVRS permiten obtener una visión general del impacto de una determinada condición así como comparar resultados entre diferentes enfermedades y tratamientos.

De una manera global, en nuestro estudio los niños con FL/P presentan valores de CVRS medidos con el cuestionario KINDL similares o incluso superiores a los observados en los controles de niños sanos, por lo que las fisuras orofaciales pueden considerarse una patología poco restrictiva y limitante en edades prescolares.

En general, los niños con fisuras orales poseen mejores niveles de salud comparado con niños con otras enfermedades y condiciones crónicas tales como asma, cáncer, obesidad, patología cardíaca, displasia fibrosa o craneosinostosis sindrómicas²⁵⁰⁻²⁵¹. Esto puede ser explicado por el hecho de que las fisuras orofaciales no se consideran patologías crónicas como tales, entendidas como aquellas que requieren un tratamiento continuo longitudinal: por un lado, los niños con afectación labial después del tratamiento quirúrgico recuperan su funcionamiento físico de forma precoz no presentando limitaciones funcionales; por otra parte, aunque los niños con afectación palatina sí requieren un tratamiento continuado, experimentan una discapacidad menos severa que niños con otras condiciones crónicas. Por ello, las fisuras orofaciales pueden ser consideradas como una entidad crónica no tan grave como otras patologías infantiles, lo que justificaría las puntuaciones obtenidas globalmente en comparación con niños sanos y niños con una enfermedad crónica.

Sin embargo, aunque de forma global el rendimiento de los niños fisurados es bastante similar a la población general, al analizar los resultados de manera individualizada observamos un número sustancial de casos particulares en los que sí existe un deterioro significativo de la CVRS global y que van a requerir un control y seguimiento más cercano para evitar problemas adaptativos futuros. Esto ya ha sido señalado por algunos autores como Chapman y cols²⁵² que, si bien en niños en edad preescolar y escolar con FL/P no observaron diferencias significativas con respecto a sus pares en el nivel de participación en conversaciones, destacan que un número importante de esos niños (50% preescolares y 20% escolares) mostraron un estilo de comunicación más inseguro y menos asertivo.

De igual manera, las diferentes dimensiones que comprenden el bienestar general (plano físico, psicológico y social) se ven alteradas de forma distinta en los niños con fisuras orofaciales, siendo necesario un análisis individualizado de ellas.

La salud física implica un adecuado funcionamiento físico y ocupacional. En el caso de los niños se refiere a la habilidad del niño para desempeñar actividades diarias propias de su edad (desplazamiento, destreza, deambulaci3n, cuidado personal), sus sensaciones físicas (la energí3a, vitalidad, fuerza muscular) y la ausencia de sintomatología física (dolor, malestar). Cuando examinamos los resultados de nuestro estudio, podemos comprobar que la mayoría de niños con fisuras orofaciales presentan valores de bienestar físico muy altos (mediana de 100) similares o incluso superiores a los observados en los controles de niños sanos.

Estos resultados est3an acordes a los observados en la literatura indicando que las FL/P no provocan alteraciones en el funcionamiento físico²⁴⁴. Sagheri y cols¹⁷ encontraron valores similares de funcionamiento físico a la poblaci3n normal en niños de edades similares a los presentados en este estudio (4-7 años) mediante el cuestionario KINDL, así como Kramer y cols¹⁴ encontraron valores superiores a la poblaci3n normal en niños en edad escolar con el mismo instrumento de medida de CVRS. Estas observaciones son corroboradas por los estudios de Warschausky y cols¹⁶ que, comparando la CVRS de niños con FL/P con niños con otras anomalías craneofaciales, concluyeron que los niños con fisuras orofaciales presentaban valores dentro de límites normales en la dimensi3n de salud física.

En los últimos años ha habido un creciente interés en el estudio de los aspectos psicológicos de los pacientes fisurados. Es sabido que los niños con una fisura orofacial

pueden experimentar múltiples dificultades desde el nacimiento²⁵³. Se ha propuesto que estas experiencias pueden alterar el funcionamiento psicológico del niño aumentando el riesgo de desarrollar más problemas en comparación con sus compañeros no afectados de alteraciones faciales.

La dimensión autoestima representa la dimensión del cuestionario KINDL con los valores más bajos obtenidos en nuestro estudio por lo que podemos indicar que la autoestima y el concepto personal constituyen un elemento problemático en los niños fisurados de 4-7 años. En esta misma línea Queiroz y cols señalan en su reciente revisión sistemática de CVRS en pacientes con fisuras orofaciales que la salud psicosocial es la dimensión más afectada en niños con FL/P²⁴⁴.

Sin embargo, la mayoría de las publicaciones que comparan los hallazgos sobre el nivel de autoestima entre fisurados y controles sanos observan unos valores equivalentes, incluso superiores, entre ambos grupos²⁴⁸. Sin embargo, estas determinaciones varían significativamente dependiendo de si el análisis se realiza sobre niños en edad infantil (4-8 años) o adolescentes (9-18 años).

En general los estudios en pacientes más pequeños (preescolares y escolares de primaria) señalan una baja autoestima para niños con fisuras orofaciales²⁵⁴⁻²⁵⁵. Estos resultados, similares a los obtenidos en nuestro estudio, también han sido contrastados empleando las mismas herramientas de medición de la CVRS en niños fisurados. Así, Kramer y cols¹⁸ en niños de 5-6 años obtuvieron las puntuaciones más bajas en la dimensión autoestima con el cuestionario KINDL, coincidiendo con los datos publicados por Sagheri y cols¹⁷ en niños fisurados con 4-7 años utilizando el mismo instrumento de CVRS. Pocas son las referencias en la bibliografía que muestran resultados contrarios, como Collet y cols²⁵⁶ que no observaron diferencias de autoconcepto y autoestima entre niños fisurados de 5 a 9 años y niños sanos.

A diferencia de las publicaciones en niños de edad infantil, los estudios de escolares mayores y adolescentes con fisura han señalado valores globales normales o altos de autoestima. Estas observaciones varían poco en los resultados presentados por la mayoría de autores en diversas publicaciones en diferentes épocas. Estudios recientes con diferentes instrumentos de medida de CVRS validados corroboran estas conclusiones en estos grupos de

edad (Kramer y cols¹⁴ en niños de 8-12 años con el cuestionario KINDL, Gussy y cols²⁵⁷ en adolescentes jóvenes de 12-16 años con el Self-Description Questionnaire II y Persson²⁵⁸ en jóvenes de 17-20 años con el cuestionario Tennessee Self Concept Scale).

Los resultados de este estudio así como de la gran parte de la bibliografía sugieren que un número significativo de niños con fisuras orofaciales se sienten estigmatizados y con una baja autoestima desde el momento que comienzan sus relaciones con iguales en la guardería o la escuela. Esta baja autoestima e imagen de sí mismo puede estar relacionada con la preocupación por el habla, la apariencia física, la idea de la existencia de unas expectativas menores por parte de los padres o una combinación de estas variables, dando lugar a una inseguridad de los niños sobre si tienen las habilidades sociales requeridas para establecer relaciones satisfactorias entre pares.

El paso de los años en la edad escolar con una atención creciente por parte de profesores y padres, la finalización de la mayoría de tratamientos médicos, quirúrgicos, ortodóncicos y de logopedia con un correcto habla y apariencia física normalizada darían lugar a una mejora creciente de la autoestima y del autoconcepto del niño hasta llegar a valores normales o incluso superiores a la media.

Por todo ello, tanto los profesionales médicos, como padres o cuidadores deben valorar y atender el desarrollo de la autoestima en particular durante la edad preescolar. Esto es especialmente importante en las familias en las que ambos padres son profesionalmente activos porque se ha demostrado que se correlaciona con puntuaciones reducidas de CVRS¹⁸.

Las relaciones sociales de los pacientes con fisuras orofaciales representa uno de los campos más estudiados dentro del bienestar. Los resultados de nuestro estudio indican que tanto en el campo de las relaciones con amigos como en el ámbito escolar los niños fisurados en edades preescolares no presentan alteraciones significativas en su adaptación comparado con sus pares. Tradicionalmente, la literatura científica señala que los niños que se ven diferentes están en riesgo de presentar una mayor frecuencia de experiencias sociales negativas²⁵⁹, sugiriendo que pueden ser blanco para unas relaciones sociales negativas debido a su aspecto físico. Algunos autores como Semb²⁶⁰ o Hunt²⁶¹ señalan que más de 60% de los niños y adolescentes con alguna diferencia anatómica visible experimentan burlas y experiencias sociales negativas.



Sin embargo, revisiones sistemáticas actuales^{244,248} basadas en artículos con valoraciones objetivas de CVRS señalan la dimensión social (contactos sociales y colegio) como la menos afectada por la presencia de fisuras orofaciales. Una hipótesis que puede explicar nuestros resultados es el hecho de que los niños fisurados en edades tempranas, a pesar de que ya comienzan a presentar problemas de autoestima, ésta todavía no se refleja en problemas de interacción social. Collet y cols²⁶² evaluaron de forma prospectiva el desarrollo psicosocial de 113 niños con fisura desde los 3 meses de edad hasta los 7 años en comparación con controles sanos. En términos generales, el estudio concluyó la existencia de escasas diferencias entre ambos grupos no encontrando evidencias de que los niños con fisuras mostraran problemas de ajuste del comportamiento o rendimiento académico durante la etapa preescolar y primeros años escolares.

Estos resultados son similares a los observados por otro autores empleando el cuestionario KINDL en niños con fisuras orofaciales: Kramer y cols señalan en niños alemanes con fisuras orales en edad preescolar¹⁸ (5-6 años) escolar¹⁴ (8-12 años) adecuados valores en CVRS en la dimensión social. En un estudio similar llevado a cabo con niños de 4-7 años, Sagheri y cols¹⁷ concluyen que los niños con fisuras presentan valores incluso ligeramente superiores en las dimensiones social y amigos que los pares sanos aunque sin ser diferencias estadísticamente significativas.

Por ello, las edades preescolares y escolares tempranas pueden ser consideradas las etapas más adecuadas para llevar a cabo las diferentes actuaciones sobre los niños fisurados (operaciones quirúrgicas encaminadas a corregir y reducir posibles secuelas funcionales o estéticas, asistencia psicológica, etc.) con el fin de evitar la aparición de problemas de autoestima que posteriormente puedan desembocar en problemas psicológicos (depresión, ansiedad, etc.) y sociales (falta de adecuados roles familiares y relacionales).

6. 6. CVRS ORAL (CUESTIONARIO COHIP)

El empleo de cuestionarios centrados en la salud oral nos permite valorar si se los resultados obtenidos mediante cuestionarios genéricos como KINDL se confirman con una herramienta más específica para problemas orales como es el cuestionario C-OHIP, instrumento aceptado y validado para su uso en pacientes con fisuras orofaciales.

En general el impacto observado en la salud oral de los niños fisurados es superior al mostrado por un cuestionario genérico. La CVRSO medida mediante COHIP muestra diferencias significativas entre los niños fisurados y los controles sanos tanto de una manera global como en todas las dimensiones del cuestionario, indicando que los niños con fisuras orofaciales perciben peor su CVRSO.

A pesar de la gran heterogeneidad existente en la literatura sobre los resultados de CVRSO en pacientes con fisuras orofaciales, varias revisiones sistemáticas parecen corroborar estos datos. Queiroz y cols²⁴⁴ compararon cuantitativamente los valores de CVRSO entre pacientes con FL/P y controles sanos, señalando que la presencia de fisuras orofaciales afecta negativamente a la CVRSO, siendo las dimensiones de bienestar emocional y funcional las más afectadas en niños y adolescentes. En este sentido, Antonarakis y cols²⁶³ concluyen en su revisión sistemática cualitativa de CVRSO que los pacientes fisurados no sindrómicos tienden a presentar una peor CVRSO que la población general, en niños (8-18 años) y en adultos (18-65 años).

Sin embargo, también existen estudios con resultados contrarios sobre CVRSO en diferentes poblaciones de niños con fisuras orofaciales. Broder y cols²⁶⁴ desarrollaron un estudio comparativo de CVRSO entre varios grupos de escolares (sanos, en tratamiento dental, ortodoncia o con anomalías craneofaciales incluidas fisuras orofaciales). Los resultados indicaron que los niños con anomalías craneofaciales no presentaron puntuaciones inferiores de CVRSO ni de forma global ni en la dimensión de bienestar funcional oral. Bos y cols²⁶⁵ obtienen las mismas conclusiones en niños holandeses de edades entre 8 y 15 años con FLP mediante el cuestionario COHIP. De forma similar, adolescentes con FL/P utilizando la escala de CVRSO de Michigan en el estudio de Munz y cols²⁴⁵, indicaron que su funcionamiento físico oral (valorando la capacidad de saborear, de comer y de realizar actividades vida diaria) era muy bueno con una presencia de síntomas (dolor) mínima.

Estas diferencias entre nuestros resultados y la literatura pueden ser explicadas por el hecho de que nuestro estudio está realizado con niños más pequeños (4-7 años), edades en las que en muchas ocasiones no se han completado algunas cirugía correctoras y en las que el proceso de adquisición de un correcto lenguaje con la ayuda de logopedas no ha finalizado.

No todas las dimensiones incluidas en los cuestionarios de CVRSO presentan valores similares en cuanto a consistencia interna. Este es el caso de la dimensión de bienestar funcional, que no posee una evidencia de alta consistencia interna en la mayoría de escalas, incluida la COHIP. Los ítems incluidos en estas sub-escalas reflejan una gran variedad de síntomas que pueden no estar alterados de forma global en algunas patologías o condiciones orales. Por ello resulta de interés el estudio de algunos ítems de la escala de manera individualizada.

Una de las funciones cuya alteración es analizada en la mayoría de estudios es la pronunciación de las palabras. El análisis independiente de los ítems más directamente relacionados con alteraciones presentes en los niños con fisuras (Limitación funcional: ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes? // Discomfort psicológico: ¿se ha sentido nervioso debido a problemas con sus dientes o boca? // Incapacidad social: ¿ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos y familia por problemas con sus dientes o boca?) demuestra la existencia de diferencias significativas en cuestiones tan relevantes como son la pronunciación o la apariencia física y su repercusión en las dimensiones física, psicológica y social, empeorando su CV respecto a niños controles.

De manera similar, para Damiano y cols¹⁵ la forma de hablar del niño se correlaciona de forma directa con los valores de CVRS psicosociales, físicos y globales. Otros estudios llevados a cabo por Hunt y cols^{194,261} señalan que el habla es un factor íntimamente asociado a la burla, de manera que los niños con fisuras orofaciales experimentan mayores problemas psicosociales por las alteraciones del habla. Según Peterson²⁶⁶ los avances en el manejo de los niños con fisuras orofaciales durante las últimas décadas han llevado a mejores resultados, siendo probable lograr que el habla sea prácticamente normal y que aquellos que tengan deficiencias, con terapia, observen mejoras y las percepciones de los niños y los padres sean positivas.

El hecho de que al usar cuestionarios más centrados en aspectos relacionados con la salud oral vemos reflejado un empeoramiento de la calidad de vida de los niños fisurados debe plantear la necesidad de cuestionarios específicos para las fisuras orofaciales que recojan de manera concreta aquellos aspectos principalmente alterados y afectados por esta patología, tales como la audición, el lenguaje o la apariencia física.

6. 7. VALORACIÓN DE LA CVRS DE LOS NIÑOS VS PADRES

Uno de los objetivos de este estudio es establecer la percepción que los padres tienen del nivel de CVRS de sus hijos con FL/P y comparar dichos valores con los valores indicados por los propios niños. Estos datos resultan de gran interés puesto que a estas edades, prescolares y escolares, gran parte de las decisiones sobre la necesidad de cuidados y ayuda especializada son llevadas a cabo por los padres.

Los padres de los niños con FL/P califican la CV global de sus hijos como buena por lo que, en general, podemos establecer que tanto los niños fisurados como los padres no consideran las fisuras orofaciales como una entidad limitante en la vida diaria de los niños. Estos hallazgos son congruentes con Sinclair²⁶⁷ que señala que los padres de niños fisurados valoran la CVRS de sus hijos en todos los dominios (emocional, social, escolar y global) de forma superior a como lo hacen los padres de niños con otras condiciones crónicas. Sin embargo destaca que, al igual que en el caso de los niños, la dimensión valorada más negativamente por los padres sea también la autoestima. Estos hallazgos hacen plantearnos que, si bien las fisuras orofaciales no tengan una gran repercusión en la vida diaria de los niños, sí genera cierto discomfort psicológico que en edades posteriores pueda verse agrabado.

Cuando comparamos las respuestas de los niños con fisuras orofaciales con las dadas por sus padres, encontramos diferencias significativas en la percepción global y en las subescalas de autoestima, amigos y enfermedad crónica. Generalmente, los padres y cuidadores tienen niveles de concordancia bajos con los resultados de CV indicados por los niños¹⁰⁵. La mayoría de autores siguen reflejando una peor percepción por parte de los padres de la CVRS de sus hijos. Para Damiano y cols¹⁵ las madres de niños fisurados valoran peor la salud psicosocial de sus hijos y Hunt y cols²⁶⁸ observan que los padres de los niños con fisura perciben que sus hijos tienen menor autoestima, mayor ansiedad, mayores problemas de comportamiento y son más infelices en general comparado con la percepción de padres de niños sin fisura. Como señalan Tobiasen y Heibert²⁶⁹ esto puede ser explicado por el hecho de que los padres sientan que sus hijos fisurados son menos capaces de integrarse socialmente de manera adecuada y, por lo tanto, sus expectativas son menores. En este mismo sentido, Wilson-Genderson y cols²⁷⁰ observaron que los pacientes con anomalías craneofaciales (incluidos pacientes con fisuras orofaciales) tienden a valorar su CVRSO mejor que sus padres

mientras que pacientes controles valoran su nivel de CVRSO de una manera similar o incluso peor que las respuestas de sus padres.

Cuando valoramos la percepción de los padres según el tipo de fisura se observa un claro predominio en la importancia dada a la apariencia física sobre las repercusiones funcionales. En nuestro estudio los padres de niños con afectación labial (LL o FLP) presentan las diferencias más marcadas sobre las valoraciones de los niños tanto de forma global como en las dimensiones autoestima y amigos. En esta línea, Hunt y cols²⁶⁸ señalan que los padres de niños fisurados describen a sus hijos como más infelices e inadaptados si presentan una cicatriz visible, dando como posible explicación el hecho de que la cicatriz visible actúe como un elemento recordatorio continuo de la fisura de su hijo. Bradbury²⁷¹ plantea que este hecho sea un reflejo del propio estado emocional de los padres. Todo ello enfatiza que el tipo de fisura parece ser un factor importante en la percepción de los padres del funcionamiento psicosocial de sus hijos.

6. 8. CVRS SEGÚN EL TIPO DE FISURA OROFACIAL

EL tipo de fisura orofacial ha sido identificado como uno de los factores con mayor influencia en la CV individual y familiar de los pacientes con FL/P, ya que nos permite establecer cuantitativamente el grado de repercusión que generan los diferentes fenotipos de fisurados según exista un predominio de alteraciones estéticas (LL), de alteraciones funcionales en la audición y habla (FP) o de ambas alteraciones (FLP).

De manera general, en nuestro estudio no se observaron diferencias significativas en los valores globales de CVRS entre los distintos tipos de fisura, concordando estos resultados con los observados en la literatura y reafirmando que las fisuras orofaciales en sus distintos subtipos no constituyen patologías con gran alteración general de la CVRS.

Sin embargo, al analizar de forma independiente las distintas dimensiones de la CVRS observamos algunas diferencias de cierta relevancia clínica. En este estudio no se observan diferencias significativas en los distintos dominios cuando aplicamos en cuestionario KINDL pero al emplear un cuestionario más específico para problemas orales como el COHIP, encontramos variaciones en ciertas dimensiones.

Los niños con afectación del paladar (FP y FLP) presentan limitaciones funcionales estadísticamente superiores a aquellos con LL. Estos resultados pueden ser atribuidos principalmente a una de las dos funciones analizadas, la afectación del lenguaje en los casos de fisura del paladar. Otros autores han corroborado estos resultados, como Bos y cols²⁶⁵ que observaron de manera similar un mejor bienestar funcional en niños con LL empleando el cuestionario COHIP.

Por el contrario, los niños con alteraciones labiales (LL y FLP) presentaron una mayor aflicción psicológica que los niños con FP. Estos resultados pueden relacionarse con el hecho de que las alteraciones estéticas generan una mayor preocupación y nerviosismo. Son pocos los estudios que han evaluado la influencia relativa de los diferentes tipos de fisura en la aparición de trastornos de ansiedad, depresión o comportamiento, sin que exista un consenso en la literatura.

En la línea de nuestro estudio, Broder y cols²⁷² en un estudio longitudinal durante 12 años observaron que la insatisfacción con la apariencia facial fue mayor entre los niños con una fisura visible (LL o FLP) que entre los niños en el grupo de control o con una fisura invisible (FP). Damiano y cols¹⁵ evaluaron los factores que pueden afectar la CVRS en preadolescentes (2-12 años de edad) con fisuras orales no sindrómicas. Los factores que más afectaban la CV estaban relacionados con el grado de secuela y la edad, el tipo de fisura y el grado de alteración física y psicológica. En los menores entre 2-7 años, las puntuaciones más altas se presentaron en LL y FLP, al compararlos con solo FP. Sin embargo, en los niños mayores en el rango de 8-12 años de edad los resultados fueron los inversos con mejores cifras en niños con FP. Según los estudios de Sagheri¹⁷ y de Kramer^{14,18} los niños con LL presentan valores superiores de bienestar emocional y los niños con FLP mayor grado de afectación psicológica. En cambio Millard y cols²⁷³ concluyeron que los niños con FP pueden mostrar problemas mayores con síntomas de depresión y ansiedad y problemas de aprendizaje que los niños con FLP.

En global puede establecerse que en los primeros años los aspectos funcionales (habla, audición) tienen un papel preponderante en la CV del niño mientras que la estética y las secuelas en el lenguaje parecen ser los factores más importantes que afectan la CV en fisuras orales, sobre todo a partir de los 8 años, cuando la aceptación por parte de pares parece ser crítica.

6. 9. IMPACTO FAMILIAR DE LAS FISURAS OROFACIALES

Las fisuras orofaciales, de forma general, representan una condición de salud que no genera gran impacto y repercusión en el funcionamiento familiar, ya que la mayoría de las puntuaciones obtenidas en nuestro estudio, tanto en global como en las diferentes dimensiones del IOFS, presentan valores medios entre 3 y 4. Estos resultados son acordes a los observados los estudios realizados por Kramer y cols¹⁹ en familias de niños con fisuras orofaciales en diferentes rangos de edad (6-24 meses, 5-6 años y 8-12 años).

Las fisuras orofaciales producen niveles de impacto familiar bajos en comparación con otras patologías crónicas infantiles estudiadas²⁷⁴⁻²⁷⁶. En este sentido, Warschausky y cols¹⁶ compararon la CVRS así como el impacto familiar entre un grupo de niños con FL/P y otro formado por niños con otras alteraciones craneofaciales. Las familias de niños con FL/P presentaron valores normales de funcionamiento familiar en contraste con la existencia de déficits y alteraciones familiares en el grupo de niños con otras alteraciones craneofaciales.

Sin embargo, como señalan Sagheri y cols¹⁷, existen casos individuales que presentan grandes alteraciones familiares y que no deben ser minusvalorados por el hecho de que de forma global la FL/P no genere excesivo impacto familiar. A pesar de que el tratamiento interdisciplinario de las FL/P comienza inmediatamente después del nacimiento y suele presentar buenos resultados funcionales y estéticos, muchas familias se encuentran afectadas psicológicamente con problemas de ansiedad y depresión y problemas para manejar y afrontar el diagnóstico de la malformación y la provisión de las necesidades especiales del niño²⁷⁷.

Durante el tratamiento primario y posteriormente las familias afectadas también pueden tener que compensar crecientes impactos económicos, personales y sociales relacionados con el tratamiento médico, dental y nutricional, probablemente reduciendo la CV.

La dimensión dominio describe el esfuerzo necesario para llevar a cabo un cambio de actitud y comportamiento para poder gestionar las demandas tanto internas como externas surgidas por un determinado acontecimiento o problema. Esta dimensión estudia el desarrollo de habilidades y estrategias para afrontar un determinado problema, es decir, las capacidades de adaptación y la manera de enfrentarse a un acontecimiento adverso²⁷⁸. Esta dimensión, a diferencia de las otras estudiadas mediante la escala IOFS, implica un impacto positivo

provocado por la enfermedad o condición de salud. Independientemente del tipo de fisura, la dimensión dominio demostró ser esencial para el funcionamiento familiar mostrando los valores más bajos de la escala. Por todo ello, las fisuras orofaciales no constituyen una condición o enfermedad crónica que requiera grandes esfuerzos de adaptación en su vida diario por parte de los miembros de la familia del niño afecto.

Según el tipo de fisura, no se encontraron diferencias significativas en el impacto familiar global entre los distintos grupos, lo cual puede indicar que la afectación labial y/o palatina no condiciona una mayor alteración familiar. Sin embargo, los resultados obtenidos en las diferentes dimensiones de la IOFS indicaron impactos asimétricos en las familias afectas según el tipo de fisura.

Las familias con niños con FP o FLP mostraron una mayor afectación las dimensiones impacto económico, familiar/social y estrés personal frente a las familias con niños con LL, indicando que los aspectos funcionales podrían tener mayor influencia que los aspectos estéticos. Esto podría ser explicado por el hecho de que las limitaciones funcionales más severas en los pacientes con fisura del paladar requieren un atención más compleja, con mayor número de visitas al hospital, una mayor duración en el tiempo, así como terapias y tratamientos adicionales tales como ortodoncia o logopedia.

Sin embargo, las familias con mayor impacto de la dimensión dominio fueron aquellas con niños con fisura labial (LL o FLP). Las posibles razones subyacentes para esta observación no están claras: probablemente la necesidad de afrontamiento es mayor debido al aspecto estético de los niños que debido a limitaciones funcionales como en los niños con FP aislada. Aunque el tratamiento del labio fisurado generalmente presenta buenos resultados con una alta satisfacción de los padres, sobrellevar esta condición estética se encontró particularmente difícil por parte de los padres y requirió una mayor implicación y desarrollo de estrategias de adaptación.

6. 10. INFLUENCIA EN LA CVRS DE OTROS FACTORES

Son varios los factores cuya influencia en la CVRS de los pacientes fisurados ha sido estudiada^{244,248}. En nuestro estudio no encontramos diferencias significativas entre los dos

grupos de edad (preescolares 4-5 años y escolares 6-7) en la CV global ni en las diferentes dimensiones estudiadas. De manera similar, varios estudios sobre el desarrollo psicosocial en edades tempranas han encontrado escasos comportamientos problemáticos en la edad preescolar²⁷⁹. Sin embargo en la edad escolar, las dificultades se hacen más evidentes. Richman y Millard²⁸⁰, en un estudio de 44 niños con fisuras de edades entre 4 y 12 años, encuentran que los problemas socio-emocionales se incrementan después de los 7 años. Para Murray y cols²⁸¹ esto es debido a que el principal factor predictor de dificultades experimentadas por los niños con fisura es su capacidad para comunicarse efectivamente (problemas para la pronunciación de ciertos sonidos).

Otro de los factores cuya repercusión ha sido estudiada es el género de niño fisurado. A pesar de que no existe consenso, son varios los autores que han señalado diferencias entre niños y niñas. Así Kramer y cols¹⁴ señalan una reducción de la CVRS en los niños fisurados cuando se compara con el sexo femenino. Si se analizan las diferencias en las distintas dimensiones, los niños refieren mejor funcionamiento físico mientras que las niñas refieren un mejor funcionamiento psicológico y social. En nuestro estudio no hemos observado diferencias por sexo en ninguna escala ni dimensión. Una posible explicación radica en la edad de nuestros pacientes, ya que los estudios que reflejan diferencias por sexo están realizados en niños en edades escolares con una mayor interacción social (mayores de 8 años). En los estudios realizados en niños preescolares no se observan diferencias entre sexos^{17,18}.

La existencia de secuelas estéticas y del lenguaje parecen destacar como principales factores de alteración de la CV sobre todo a partir de los 8 años y durante la adolescencia, aunque posteriormente con el paso de los años parece normalizarse. Berger y cols²⁸², tras estudiar diversos aspectos psicosociales en adolescentes con fisura, encuentran diferencias significativas entre el grupo más joven (11-13 años) y el mayor (14-16 años), con un mayor número de experiencias sociales negativas en los adolescentes más jóvenes. Munz y cols²⁴⁵ observaron datos de satisfacción con el tratamiento y niveles de CV similares en pacientes con edades desde 12 a 23 años y sus padres.

Richman y cols²⁸⁰ observaron cierta relación entre la aparición de alteraciones psicológicas y de comportamiento a determinadas edades (niños con fisuras orofaciales de 6, 9 y 12 años de edad) y su relación con la apariencia física y los trastornos del habla: En el grupo de edad más joven no había ninguna asociación significativa; En el grupo de 9 años, sin

embargo, los niños una mayor inhibición conductual así como problemas psicológicos fundamentalmente en relación con problemas del habla; Por el contrario, los niños de 12 años se asociaron con niveles más altos de problemas psicológicos en relación con una mayor desfiguración facial. Una posible explicación a esta influencia de la edad en la aparición de trastornos psicológicos es la dada por Warschausky y cols¹⁶ que señalan que, aunque las anomalías craneofaciales pueden estar asociadas con pobres habilidades sociales a una temprana edad, esta asociación no se traduce en trastornos psicológicos hasta que los niños son mayores, edad en la que la insatisfacción con la apariencia facial está significativamente asociada con problemas psicosociales.

El tratamiento de las fisuras orofaciales supone varios procedimientos e intervenciones que abarcan desde la época neonatal hasta la edad adulta, cada etapa con sus implicaciones en el desarrollo del niño (en la edad pre-escolar es la etapa en la que el niño comienza a socializarse por primera vez; en la edad escolar es la etapa en la que comienzan a aprender a leer; la etapa de la adolescencia constituye una fase crucial en el desarrollo e integración social del niño).

La necesidad de reintervenciones en los pacientes fisurados está relacionada con la presencia de secuelas, bien sean estéticas (alteraciones labiales y/o nasales) o funcionales (alteraciones en el habla o audición). La existencia de estas secuelas y la necesidad de nuevas cirugías implican un efecto negativo en el funcionamiento del niño, con la consiguiente pérdida de CVRS. En este sentido Broder y cols²⁷² señalan una menor CVRSO en niños con fisuras orofaciales de 7-19 años a los que se recomendó la necesidad de nuevas cirugías frente al resto de niños fisurados. Sin embargo, no existen estudios que confirmen si la realización de estas cirugías secundarias implica una mejoría en la CVRS.

6. 11. FORTALEZAS Y LIMITACIONES

En el presente apartado se pretende exponer dos aspectos clave del estudio: cuáles han sido las principales aportaciones o fortalezas de este trabajo y qué limitaciones o debilidades se han encontrado durante la misma.

Aunque, como hemos comentado anteriormente, los resultados de la investigación son coherentes con las evidencias científicas disponibles, la generalización de los resultados podría estar condicionada por algunas de las limitaciones del estudio. Las principales limitaciones pueden resumirse en los siguientes puntos:

- En relación a la selección de la muestra, habría sido deseable que la elección de los casos hubiera sido de manera aleatorizada ya que la selección de manera consecutiva puede dar lugar a sesgos al no incluir a los pacientes que deciden no acudir a consulta (bien porque su situación sea muy favorable y vean innecesaria la revisión médica, porque la situación médica del niño impida que acuda a la revisión o por dejadez de los familiares al cuidado del menor).
- Con respecto a la selección de los controles, si bien idealmente deberían haber sido seleccionados de la misma población de la cual fueron seleccionados los casos (ámbito hospitalario), su selección en dos centros de atención primaria (uno urbano y otro rural) representativos del área de referencia hospitalaria y la inclusión y estudio en grupos según diferentes variables, hace que sea bastante similar a la muestra de casos.
- Con respecto a posibles sesgos de medición, la no disponibilidad de cuestionarios específicos desarrollados para pacientes fisurados así como no disponer de cuestionarios autoadministrados de CVRSO para las edades de los pacientes de nuestro estudio puede dar lugar a ciertos sesgos que afecten a la validez externa del estudio.

En la presente tesis se realiza una actualización e integración del manejo del paciente fisurado en un hospital de referencia de tercer nivel. También se analiza empíricamente las dimensiones de CVRS general y oral en pacientes fisurados, unificando la visión de los propios niños y la de sus padres. En este sentido, mediante las dos investigaciones realizadas, esta tesis aporta información con alcance para la investigación, así como para profesionales encargados de la atención y asistencia de estos pacientes. Entre las principales fortalezas de este estudio se destaca:

- La selección de los casos y controles en grupos diferenciados en función de edad, sexo, tipo fisura y necesidad reintervenciones permite evitar que estas variables actúen como sesgos de confusión, pudiendo determinar su relevancia e influencia en la CVRS de los niños fisurados.
- La recogida de datos por parte de profesionales diferentes en los casos y controles evita la posibilidad de sesgos de medición por el hecho de que la variable dependiente resulte ser más interesante para el investigador en el grupo de casos que el grupo que participa como control.
- El empleo de herramientas validadas y ampliamente difundidas, como son el cuestionario KINDL, el C-OHIP o el IOFS, permiten la comparabilidad de nuestros resultados con otros estudios.
- El análisis en este estudio de los diferentes aspectos implicados en la salud de los niños fisurados (salud general, salud oral, visión de los padres e impacto familiar) nos permite obtener una perspectiva global y completa de la situación de los niños fisurados una vez completo su tratamiento quirúrgico primario.
- La mayoría de estudios de CVRS en fisurados están realizados en adultos o adolescentes siendo muy pocos los hechos a edades infantiles como este estudio. Uno de los objetivos que persigue analizar de la CVRS en una enfermedad o condición crónica es que, conociendo los principales aspectos o facetas afectadas por la enfermedad de la vida del paciente, podamos adaptar el tratamiento para mejorar dichas facetas. Aunque el tratamiento del fisurado abarca casi toda su vida, el tratamiento primario principal se desarrolla antes de los 3 años edad (queiloplastia y palatoplastia) y sus principales secuelas o problemas (estética y habla) se manifiestan justo en la edad de comienzo escolar, por lo que conocer la CVRS de un fisurado a la edad de 4-7 años puede considerarse la edad fundamental y más importante a la que estudiar esa CVRS.

6. 12. CONSIDERACIONES DE FUTURO

El estudio de la CVRS en niños con fisuras orofaciales realizado en esta tesis debe ser el punto de partida para una aplicación más práctica de las percepciones que los pacientes tienen sobre su enfermedad y sus tratamientos.

El siguiente paso en la línea de investigación de esta tesis sería el desarrollo de estudios prospectivos experimentales en el que se compararía la CVRS en grupos de niños sometidos a diferentes intervenciones (técnicas quirúrgicas diferentes, distintas pautas de manejo postoperatorio, número de días estancia, etc.) con el fin de mejorar nuestro protocolo actuación en base a la percepción de los niños y sus padres.

Otra posibilidad de interés sería repetir el estudio realizado, entrevistando, si fuera posible, a los mismos participantes dentro de unos años, en un marco temporal distinto para descubrir si los factores y áreas de satisfacción e insatisfacción personal y familiar cambian en función de la fase evolutiva y de la edad del entrevistado. En definitiva, se trataría de diseñar una investigación cualitativa de tipo longitudinal y no transeccional.

La búsqueda de un protocolo universal único de manejo de los pacientes fisurados precisaría de la realización de estudios multicéntricos internacionales que permitieran comparar resultados en varias disciplinas como parte de la valoración global (resultados quirúrgicos, ortodónticos, resultados en el habla y audición y resultados sobre CVRS) del manejo de niños con fisuras.

Por otra parte, la valoración adecuada de la CVRS en pacientes con fisuras orofaciales requeriría el desarrollo, validación y adaptación internacional de un cuestionario específico para los pacientes fisurados, un cuestionario que recogiera ítems específicos para los diferentes problemas presentes en estos pacientes tales como problemas estéticos, de habla o de audición. Este cuestionario ideal debería recoger diferentes escalas o perfiles en función del tipo de fisura y de la edad del paciente para así adaptarse a los diferentes subtipos clínicos y a las distintas etapas de tratamiento de estos pacientes desde su nacimiento hasta la edad adulta.



VII

CONCLUSIONES

7. CONCLUSIONES

- 1.** La Unidad del Fisurado del HUVR cumple con los requisitos de calidad en el tratamiento de los niños con FL/P establecidos por las principales sociedades europeas y mundiales de fisurados (Eurocran y ACPA): número mínimo de 30-50 casos incidentes tratados por año, edades máximas para queiloplastia -6 meses- y palatoplastia -18 meses- (*conclusión referida al Objetivo General número 1*).
- 2.** En niños fisurados de 4 a 7 años, la percepción de la CVRS autopercibida medida con el cuestionario kiddy-KINDL presenta una puntuación global de 82,11, que indica que las fisuras orofaciales no reducen de manera estadísticamente significativa ni la CVRS global ni sus diferentes dimensiones (bienestar funcional, psicológico y social) en niños en edad preescolar y escolar temprana (*conclusión referida al Objetivo General número 2*).
- 3.** Nuestra serie de 460 pacientes con fisuras orofaciales constituye la muestra más amplia estudiada en España. Nuestros hallazgos demuestran que el subtipo clínico más frecuente es la fisura labio-palatina unilateral completa izquierda (*conclusión referida al Objetivo Específico número 1*).
- 4.** La secuencia empleada en nuestra Unidad de cierre de la FLP en dos intervenciones (queiloplastia en un primer tiempo seguida de una segunda intervención para el cierre conjunto de paladar duro y paladar blando) ha confirmado ser un tratamiento adecuado para el manejo primario de las fisuras orofaciales en nuestro centro, con un bajo porcentaje global de secuelas que requirieran intervenciones posteriores (13,2% de secuelas labiales, 8,2% fistulas palatinas, 9,2% IVF). Este protocolo es seguido por la mitad de equipos europeos a pesar de no existir un protocolo de tratamiento internacionalmente establecido (*conclusión referida al Objetivo Específico número 2*).
- 5.** La percepción de la salud en niños fisurados de 4-7 años es similar a la que perciben niños sanos de la misma edad, con puntuaciones de 82,11 y 83,71 respectivamente, excepto en la dimensión de la autoestima, en la cual puntúan 5 unidades por debajo respecto a los niños sanos (*conclusión referida al Objetivo Específico número 3*).

6. El empleo de cuestionarios más específicos para evaluar la CVRSO revela diferencias estadísticamente significativas en el bienestar funcional y psicosocial relacionadas con problemas funcionales como la pronunciación de palabras y estéticos como la existencia de cicatrices faciales. La existencia de casos individuales con mayor afectación requieren una vigilancia y control más estrechos de estos niños (*conclusión referida al Objetivo Específico número 4*).
7. Los padres de los niños fisurados refieren peores niveles de CVRS que los percibidos por los propios niños afectados de manera estadísticamente significativa, siendo esta discrepancia más evidente en los casos con fisura labial (alteraciones estéticas) que en los casos con fisuras palatinas (alteraciones funcionales) (*conclusión referida al Objetivo Específico número 5*).
8. Las fisuras orofaciales pueden ser consideradas como entidades crónicas que no generan un gran impacto en el normal funcionamiento familiar. Las puntuaciones medias en el cuestionario IOFS de las familias examinadas generalmente varían entre 3 y 4 puntos, indicando así un mínimo impacto tanto global como en las distintas dimensiones (*conclusión referida al Objetivo Específico número 6*).
9. Los diferentes tipos clínicos de fisuras orofaciales no presentan variaciones estadísticamente significativas en la CVRS global; sin embargo, los niños con afectación del paladar (FP y FLP) presentan valores estadísticamente inferiores en bienestar funcional mientras que los niños con afectación del labio (LL y FLP) presentan una afectación estadísticamente significativa de los aspectos psicológicos (*conclusión referida al Objetivo Específico número 7*).
10. El nivel de CVRS de los niños fisurados no se ve influenciado significativamente por factores como la edad o el sexo; sin embargo la necesidad de reintervenciones por secuelas estéticas o funcionales sí se asocia de una manera estadísticamente significativa a una peor CVRS (*conclusión referida al Objetivo Específico número 8*).



VIII

BIBLIOGRAFÍA

8. BIBLIOGRAFÍA

1. Mossey P, Castillia E. Global registry and database on craniofacial anomalies. Geneva: World Health Organization; 2003.
2. Parker SE, Mai CT, Canfield MA, Rickard R, Wang Y, Meyer RE, et al. Updated National Birth Prevalence estimates for selected birth defects in the United States, 2004-2006. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*. 2010 Dec;88(12):1008-16.
3. Wehby GL, Cassell CH. The impact of orofacial clefts on quality of life and healthcare use and costs. *Oral Dis*. 2010 Jan;16(1):3-10.
4. Consiglio E, Belloso WH. Nuevos indicadores clínicos. La calidad de vida relacionada con la salud. *Medicina (Buenos Aires)*. 2003;63(2):172-8.
5. Alonso J. La medida de la calidad de vida relacionada con la salud en la investigación y la práctica clínica. *Gac Sanit*. 2000;14(2):163-7.
6. Parameters for evaluation and treatment of patients with cleft lip/palate or other craniofacial anomalies. March, 1993. *Cleft Palate Craniofac J*. 1993 Mar;30 Suppl:S1-16.
7. Lee S, McGrath C, Samman N. Quality of life in patients with dentofacial deformity: a comparison of measurement approaches. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2007; 36:488-92.
8. Sinko K, Jagsch R, Prechtel V, Watzinger F, Hollmann K, Baumann A. Evaluation of esthetic, functional, and quality of life outcome in adult cleft lip and palate patients. *Cleft Palate Craniofac J* 2005 Jul;42(4):355-61.
9. Strauss RP, Fenson C. Experiencing the "good life": Literary views of craniofacial conditions and quality of life. *Cleft Palate Craniofac J*. 2005 Jan; 42(1):14-8.
10. Marcusson A, Akerlind I, Paulin G. Quality of life in adults with repaired complete cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J*. 2001 Jul; 38(4): 379-85.
11. Topolski TD, Edwards TC, Patrick DL. Quality of life: how do adolescents with facial differences compare with other adolescents? *Cleft Palate Craniofac J* 2005 Jan; 42(1):25-32.
12. Bressmann T, Sader R, Ravens-Sieberer U, et al. Quality of life research in patients with cleft lip and palate: preliminary results. *Mund Kiefer Gesichtschir* 1999 May; 3(3):134-9.
13. Leonard BJ, Brust JD, Abrahams G, Sielaff B. Self concept of children and adolescents with cleft lip and/or palate. *Cleft Palate Craniofac J* 1991 Oct; 28(4): 347-53.
14. Kramer FJ, Gruber R, Fialka F, Sinikovic B, Hahn W, Schliephake H. Quality of life in school-age children with orofacial clefts and their families. *J Craniofac Surg*. 2009 Nov; 20(6): 2061-6.
15. Damiano PC, Tyler MC, Romitti PA, Momany ET, Jones MP, Canady JW, et al. Health-related quality of life among preadolescent children with oral clefts: the mother's perspective. *Pediatrics*. 2007 Aug; 120(2): e283-90.
16. Warschausky S, Kay JB, Buchman S, Halberg A, Berger M. Health-related quality of life in children with craniofacial anomalies. *Plast Reconstr Surg* 2002 Aug; 110(2):409-14.
17. Sagheri D, Ravens-Sieberer U, Braumann B, von Mackensen S. An Evaluation of Health-Related Quality of Life (HRQoL) in a group of 4-7 year-old children with cleft lip and palate. *J Orofac Orthop*. 2009 Jul; 70(4): 274-84.
18. Kramer FJ, Gruber R, Fialka F, Sinikovic B, Schliephake H. Quality of life and family functioning in children with nonsyndromic orofacial clefts at preschool ages. *J Craniofac Surg*. 2008 May; 19(3): 580-7.
19. Kramer FJ, Baethge C, Sinikovic B, Schliephake H. An analysis of quality of life in 130 families having small children with cleft lip/palate using the impact on family scale. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2007 Dec; 36(12): 1146-52.
20. Weigl V, Rudolph M, Eysholdt U, Rosanowski F. Anxiety, depression, and quality of life in mothers of children with cleft lip/palate. *Folia Phoniatr Logop* 2005 Jan-Feb; 57(1):20-7.

21. IPDTC Working Group. Prevalence at birth of cleft lip with or without cleft palate: data from the International Perinatal Database of Typical Oral Clefts (IPDTC). *Cleft Palate Craniofac J.* 2011 Jan;48(1):66-81.
22. Marazita ML, Spence MA, Melnick M. Major gene determination of liability to cleft lip with or without cleft palate: a multiracial view. *J Craniofac Genet Dev Biol Suppl.* 1986;2:89-97.
23. Brito LA, Meira JG, Kobayashi GS, Passos-Bueno MR. Genetics and management of the patient with orofacial cleft. *Plast Surg Int.* 2012;2012:782821.
24. Gabrielli S, Piva M, Ghi T, Perolo A, De Santis MS, Bevini M et al. Bilateral cleft lip and palate without premaxillary protrusion is associated with lethal aneuploidies. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2009 Oct;34(4):416-8.
25. Kondo S, Schutte BC, Richardson RJ, Bjork BC, Knight AS, Watanabe Y et al. Mutations in IRF6 cause Van der Woude and popliteal pterygium syndromes. *Nat Genet.* 2002 Oct;32(2):285-9.
26. Birnbaum S, Ludwig KU, Reutter H, Herms S, Steffens M, Rubini M et al. Key susceptibility locus for nonsyndromic cleft lip with or without cleft palate on chromosome 8q24. *Nat Genet.* 2009 Apr;41(4):473-7.
27. Murray JC. Gene/environment causes of cleft lip and/or palate. *Clin Genet.* 2002 Apr;61(4):248-56.
28. Carmichael SL, Shaw GM, Ma C, Werler MM, Rasmussen SA, Lammer EJ; National Birth Defects Prevention Study. Maternal corticosteroid use and orofacial clefts. *Am J Obstet Gynecol.* 2007 Dec;197(6):585.e1-7; discussion 683-4, e1-7.
29. Sadler TW *Langman's medical embryology.* 12th ed. Philadelphia: Wolters Kluwer Health/Lippincott Williams & Wilkins; 2012.
30. Cohen MM. Etiology and pathogenesis of orofacial clefting. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am* 2000;12:379-83.
31. Hall BK. *The neural crest in development and evolution.* New York: SpringerVerlag; 1999.
32. Stanier P, Moore GE. Genetics of cleft lip and palate: syndromic genes contribute to the incidence of non-syndromic clefts. *Hum Mol Genet.* 2004 Apr 1;13 Spec No 1:R73-81.
33. Dado DV, Kernahan DA, Gianopoulos JG: Intrauterine repair of cleft lip: What's involved. *Plast Reconstr Surg.* 1990 Mar;85(3):461-5
34. Hedrick MH, Rice HE, Vander Wall KJ, Adzick NS, Harrison MR, Siebert J, et al. Delayed in utero repair of surgically created fetal cleft lip and palate. *Plast Reconstr Surg* 1996 Apr;97(5):900-5; discussion 906-7.
35. Estes JM, Whitby DJ, Lorenz HP, Longaker MT, Szabo Z, Adzick NS et al. Endoscopic creation and repair of fetal cleft lip. *Plast Reconstr Surg.* 1992 Nov;90(5):743-6; discussion 747-9.
36. Oberg KC, Robles AE, Ducsay C, Childers B, Rasi CR, Gates DL, Kirsch WM et al. Endoscopic excision and repair of simulated bilateral cleft lips in fetal lambs. *Plast Reconstr Surg* 1998 Jul;102(1):1-9.
37. Stelnicki EJ, Lee S, Hoffman W, Lopoo J, Foster R, Harrison MR et al. A long-term, controlled-outcome analysis of in utero versus neonatal cleft lip repair using an ovine model. *Plast Reconstr Surg* 1999 Sep;104(3):607-15.
38. Druschel CM, Hughes JP, Olsen CL. First year-of-life mortality among infants with oral clefts: New York State, 1983-1990. *Cleft Palate Craniofac J.* 1996 Sep;33(5):400-5.
39. Rose E. Ueber den plastischen Ersatz des harten Gaumens aus der Lipp. *Arch Klin Chir* 1879;24:438 [in German].
40. Thompson JE. An artistic and mathematically accurate method of repairing the defect in cases of harelip. *Surg Gynecol Obstet* 1912;14:498-505.
41. LeMesurier AB. A method of cutting and suturing the lip in the treatment of complete unilateral clefts. *Plast Reconstr Surg* 1949 Jan;4(1):1-12
42. Tennison CW. The repair of the unilateral cleft lip by the stencil method. *Plast Reconstr Surg* 1952 Feb;9(2):115-20.
43. Randall P. A triangular flap operation for the primary repair of unilateral clefts of the lip. *Plast Reconstr Surg Transplant Bull.* 1959 Apr;23(4):331-47.

44. Marcks KM, Trevaskis AE, DaCosta A. Further observations in cleft lip repair. *Plast Reconstr Surg* 1953 Dec;12(6):392-402.
45. Rohrich RJ, Love EJ, Byrd HS, Johns DF. Optimal timing of cleft palate closure. *Plast Reconstr Surg*. 2000 Aug;106(2):413-21; quiz 422; discussion 423-5.
46. Graber TM. Craniofacial morphology in cleft palate and cleft lip deformities. *Surg. Gynecol. Obstet.* 1949 Mar;88(3):359-69.
47. Von Langenbeck, B. Die Uranoplastik mittelst Ablösung des mucös-periostalen Gaumentüberzuges. *Langenbeck's Arch Klin Chir.* 1861;2:205–87.
48. Wardill WEM. The technique of operation for cleft palate. *Br Med J.* 1937 Jul;25(97):117-30.
49. Kilner TP. The management of the patient with cleft lip and/or palate. *Am J Surg.* 1958 Feb;95(2):204-10.
50. Furlow LT Jr. Cleft palate repair by double opposing Z-plasty. *Plast Reconstr Surg.* 1986 Dec;78(6):724-38.
51. Shaw WC, Semb G, Nelson P, Brattstrom V, Molsted K, Prahll-Andersen B, et al. The Eurocleft Project 1996–2000: overview. *J Craniomaxillofac Surg* 2001 Jun;29(3):131-40; discussion 141-2.
52. Nollet PJ, Kuijpers-Jagtman AM, Chatzigianni A, Semb G, Shaw WC, Bronkhorst EM, et al. Nasolabial appearance in unilateral cleft lip, alveolus and palate: a comparison with Eurocleft. *J Craniomaxillofac Surg.* 2007 Sep-Oct;35(6-7):278-86.
53. Nollet PJ, Katsaros C, van't Hof MA, Semb G, Shaw WC, Kuijpers-Jagtman AM. Treatment outcome after two-stage palatal closure in unilateral cleft lip and palate: a comparison with Eurocleft. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005 Sep;42(5):512-6.
54. Friede H, Lilja J. The Eurocleft Study: Intercenter study of treatment outcome in patients with complete cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005 Jul;42(4):453-4.
55. Arostegi BI. Evaluación de la calidad de vida en personas adultas con retraso mental en la comunidad autónoma del País Vasco. Tesis doctoral. País vasco: ICE de la Universidad de Deusto; 1998.
56. Moreno B, Ximenez C. Evaluación de la calidad de vida. En: Buela G, Caballo VE, Sierra CJ, editores. *Manual de evaluación en psicología clínica y de la salud.* Madrid: Siglo XXI; 1996. p. 1045-1067.
57. Hech P. Quality of life measurement in chronic disorders. *Psychother psychosom.* 2003;59:1-10.
58. United Nations (UN). *International definition and measurement of standards and levels of living.* Nueva York: United Nations Publications. 1954.
59. Schalock RL, Verdugo MA, Jenaro C, Wang M, Wehmeyer M, Xu J et al. Cross-cultural study of quality of life indicators. *Am J Ment Retard.* 2005 Jul;110(4): 298-311.
60. Lawton MP. A multidimensional view of quality of life in frail elders. En: Birren E, Lubben J, Cichowlas J, Deutchman DE, editores. *The concept and measurement of quality of life in the frail elderly.* San Diego: Academic Press; 1991. p. 1-27.
61. Felce D, Perry J. Quality of life: its definition and measurement. *Res Dev Disabil.* 1995 Jan-Feb;16(1); 51-74.
62. Cummins RA. Assessing quality of life. En: Brown RI, editor. *Quality of life for people with disabilities: models, research and practice.* 2ª ed. Cheltenham: Stanley Thornes; 1997. p. 116-150.
63. WHOQOL Group. The World Health Organization Quality of Life. Assessment (WHOQOL). Position Paper from the World Health Organization. *Soc Sci Med.* 1995;41:1403-9.
64. WHOQOL Group. Study protocol for the World Health Organization project to develop a Quality of Life assessment instrument (WHOQOL). *Qual life Res.* 1993;2:153-9.
65. WHO. Organization, constitution of the World Health Organization, Annex 1ª. En *10 years of WHO.* Geneva:WHO; 1958
66. WHO. *International classification of impairments, disabilities and handicaps.* Geneva: WHO, 1980.



67. WHO. International Classification of Functioning, Disability and Health. Geneva:WHO, 2001.
68. Badía X. La medida de la calidad de vida relacionada con la salud en los ensayos clínicos. En Sacristán J, Badía J, Rovira J, editores. Farmacoeconomía. Madrid: Editores Médicos; 1995.
69. Naughton MJ, Shumaker SA, Anderson RT, Czajkowski SM. Psychological aspects of health-related quality of life measurement: Tests and Scales. En: Spilker B, eds. Quality of Life and Pharmaco-economics in Clinical Trials. New York: Lippincott-Raven; 1996; p.117-131.
70. Patrick D, Erickson P. Health Status and Health Policy. Allocating Resources to Health Care. Oxford: Oxford University Press; 1993. p. 22.
71. Bulpitt CJ. Quality of life as an outcome measure. Postgrad Med J. 1997 Oct;73(864):613-6.
72. Bowling A. Measuring Health: A review of Quality of Life Measurement Scales. Buckingham: Open University Press;1991.
73. Wu AW. Quality of life assessment in clinical research: application in diverse populations. Med Care. 2000 Sep;38(9 Suppl):II130-5.
74. Testa MA, Simonson DC. Current Concepts: Assessment of Quality-of-Life Outcomes. N Engl J Med. 1996 Mar; 334(13): 835-40.
75. Lawton MP. Quality of life and the end of life. En Birren Je, Schaie KW, eds. Handbook of the psychology of aging. 5th ed. San Diego, CA: Academic Press; 2001.
76. Karnofsky DA, Burchenal JH. The clinical evaluation of chemotherapeutic agents in cancer. En McLeod CM, ed. Evaluation of chemotherapeutic agents. Nueva York: Columbia University Press; 1949.
77. Donovan K, Sanson-Fisher RW, Redman S. Measuring quality of life in cancer patients. J Clin Oncol 1989 Jul;7(7):959-68.
78. Guyatt GH, Veldhuyzen van Zanten SJ, Feeny DH, Patrick DL. Measuring quality of life in clinical trials: a taxonomy and review. CMAJ 1989 Jun 15;140(12):1441-8.
79. Ware JE Jr, Sherbourne CD. The MOS 36-Item Short- Form Health Survey (SF-36). Conceptual Framework and Item Selection. Med Care. 1992 Jun;30(6):473-83.
80. Alonso J, Prieto L, Antó JM. [The Spanish version of the SF-36 Health Survey (the SF-36 health questionnaire): an instrument for measuring clinical results]. Med Clin (Barc) 1995 May 27;104(20):771-6.
81. Ware J Jr, Kosinski M, Keller SD. A 12 Item Sort-Form Health Survey. Construction of Scales and Preliminary Tests of Reliability and Validity. Med Care 1996 Mar;34(3):220-33.
82. Brooks R. EuroQol: The current state of play. Health Policy 1996 Jul;37(1):53-72.
83. Badía X, Roset M, Montserrat S, Herdman M, Segura A. [The Spanish version of EuroQol: a description and its applications. European Quality of Life scale]. Med Clin (Barc). 1999;112 Suppl 1:79-85.
84. Hunt SM. Nottingham Health Profile. In: Wenger NK, Mattson ME, Furberg CD, Elison J, eds. Assessment of Quality of Life in Clinical Trials of Cardiovascular Therapies. Washington DC: Le Jacq Press; 1984.
85. Alonso J, Prieto L, Antó JM. The spanish version of the Nottingham Health Profile: a review of adaption and instrument characteristics. Qual Life Res 1994 Dec;3(6):385-93.
86. Ditesheim JA, Templeton JM Jr. Short-term v long-term quality of life in children following repair of high imperforate anus. J Pediatr Surg. 1987 Jul; 22(7):581-7.
87. Herndon DN, LeMaster J, Beard S, Bernstein N, Lewis SR; Rutan TC, et al. The quality of life after major thermal injury in children: An analysis of 12 survivors with greater than or equal to 80% total body, 70% third-degree burns. J Trauma. 1986 Jul;26(7):609-19.
88. Lansky SB, List MA, Lansky LL, Ritter-Sterr C, Miller DR. The measurement of performance in childhood cancer patients. Cancer 1987 Oct 1;60(7):1651-6.
89. Verdugo, MA, Sabeh, EN. Evaluación de la percepción de calidad de vida en la infancia. Psicothema 2002;14(1):86-91.

90. Quiceno J, Vinaccia S. Calidad de vida relacionada con la salud infantil: una aproximación conceptual. *Psicología y Salud*. 2008;18(1):37-44.
91. Pane S, Solans M, Gaité L, Serra-Sutton V, Estrada MD, Rajmil L. Instrumentos de calidad de vida relacionada con la salud en la edad pediátrica. Revisión Sistemática de la literatura: actualización. Agencia de Evaluación de Tecnología e Investigaciones Médicas. Barcelona; 2006.
92. Bullinger M, Schmidt S, Petersen C; DISABKIDS Group. Assessing quality of life of children with chronic health conditions and disabilities: a European approach. *Int J Rehabil Res*. 2002 Sep;25(3):197-206.
93. Sardón Prado O, Morera G, Herdman M, Moreno Galdó A, Pérez-Yarza EG, Detmar S, et al. Spanish version of the TNO-AZL preschool children quality of life questionnaire (TAPQOL). *An Pediatr (Barc)*. 2008 May;68(5):420-4.
94. Klassen AF, Anthony SJ, Khan A, Sung L, Klassen R. Identifying determinants of quality of life of children with cancer and childhood cancer survivors: a systematic review. *Support Care Cancer*. 2011 Sep;19(9):1275-87.
95. Eiser C. Helping the child with chronic disease: Themes and directions. *Clin Child Psychol Psychiatry*. 1996 Oct;1(4):551-61.
96. Eiser C, Mohay H, Morse R. The measurement of quality of life in young children. *Child Care Health Dev*. 2000 Sep;26(5):401-14.
97. Wallander JL, Schmitt M, Koot HM. Quality of life measurement in children and adolescents: Issues, instruments and applications. *J Clin Psychol*. 2001 Apr;57(4):571-85.
98. Landgraf JM, Ravens-Sieberer U, Bullinger M. Quality of lifemeasurement in children: Methods and instruments. *Dial Ped Urol*. 1997;20(11):5-7.
99. Hays RD, Vickrey BG, Hermann BP, Perrine K, Cramer J, Meador K, et al. Agreement between self reports and proxy reports of quality of life in epilepsy patients. *Qual Life Res*. 1995 Apr;4(2):159-68.
100. Theunissen NC, Vogels TG, Koopman HM, Verrips GH, Zwinderman KA, Verloove-Vanhorick SP, Wit JM. The proxy problem: child report versus parent report in health-related quality of life research. *Qual Life Res*. 1998 Jul;7(5):387-97
101. Varni JW, Limbers CA, Burwinkle TM. Parent proxy-report of their children's health-related quality of life: an analysis of 13,878 parents' reliability and validity across age subgroups using the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health Qual Life Outcomes*. 2007 Jan 3;5:2.
102. Jokovic A, Locker D, Guyatt G. How well do parents know their children? Implications for proxy reporting of child health-related quality of life. *Qual Life Res*. 2004 Sep;13(7):1297-307.
103. Cremeens J, Eiser C, Blades M. Characteristics of health-related self-report measures for children aged three to eight years: A review of the literature. *Qual Life Res*. 2006 May;15(4):739-54.
104. FDA: Guidance for Industry: Patient-reported outcome measures: Use in medical product development to support labeling claims. Center for Drug Evaluation and Research, Food and Drug Administration, Rockville, MD; 2006.
105. Eiser C, Morse R. A review of measures of quality of life for children with chronic illness. *Arch Dis Child*. 2001 Mar;84(3):205-11.
106. Solans M, Pane S, Estrada MD, Serra-Sutton V, Berra S, Herdman M, et al. Health-related quality of life measurement in children and adolescents: a systematic review of generic and disease-specific instruments. *Value Health*. 2008 Jul-Aug;11(4):742-64.
107. Grange A, Bekker H, Noyes J, Langley P. Adequacy of health-related quality of life measures in children under 5 years old: systematic review. *J Adv Nurs*. 2007 Aug;59(3):197-220.
108. Varni JW, Seid M, Kurtin PS. PedsQL 4.0: reliability and validity of the Pediatric Quality of Life Inventory™ Version 4.0 generic core scales in healthy and patient populations. *Medical Care* 2001 Aug;39(8):800-12.
109. González-Gil T, Mendoza-Soto A, Alonso-Lloret F, Castro-Murga R, Pose-Becerra C, Martín-Arribas MC. The Spanish version of the health-related quality of life questionnaire for children and adolescents with heart disease (PedsQL(TM)). *Rev Esp Cardiol (Engl Ed)*. 2012 Mar;65(3):249-57.
110. Starfield B, Bergner M, Ensminger M, Riley A, Ryan S, Green B, et al. Adolescent health status measurement: development of the Child Health and Illness Profile. *Pediatrics*. 1993 Feb;91(2):430-5.



111. Rajmil L, Serra-Sutton V, Alonso J, Starfield B, Riley A, Vázquez JR; Research group for the Spanish version of the CHIP-AE. The Spanish version of the Child Health and Illness Profile, Adolescent Edition (CHIP-AE). *Qual Life Res* 2003 May;12(3):303-13.
112. Rajmil L, Serra-Sutton V, Estrada MD, Fernandez De Sanmamed MJ, Guillamón I, Riley A, et al. [Cross-cultural adaptation of the Spanish version of the Child Health and Illness Profile, Child Edition (CHIP-CE)]. *An Pediatr (Barc)*. 2004 Jun;60(6):522-9.
113. Ravens-Sieberer U, Gosch A, Rajmil L, Erhart M, Bruil J, Power M, et al. KIDSCREEN Group. The KIDSCREEN-52 quality of life measure for children and adolescents: psychometric results from a cross cultural survey in 13 European countries. *Value Health*. 2008 Jul-Aug;11(4):645-58.
114. Aymerich M, Berra S, Guillamon I, Herdman M, Alonso J, Ravens-Sieberer U et al. Development of the Spanish version of the KIDSCREEN, a health-related quality of life instrument for children and adolescents. *Gac Sanit*. 2005 Mar-Apr;19(2):93-102.
115. Ravens-Sieberer U, Bullinger M. Assessing health-related quality of life in chronically ill children with the German KINDL: first psychometric and content analytical results. *Qual Life Res*. 1998 Jul;7(5):399-407.
116. Gift HC, Redford M. Oral health and the quality of life. *Clin Geriatr Med*. 1992 Aug;8(3):673-83.
117. Cohen LK, Jago JD. Toward the formulation of sociodental indicators. *Int J Health Serv*. 1976;6(4):681-98.
118. Nikias M. Oral disease and quality of life. *Am J Public Health*. 1985 Jan;75(1):11-2.
119. Sheiham A. The Berlin Declaration on oral health and oral health services; *Quintessence Int*. 1993 Dec;24(12):829-31.
120. Dolan TA. Identificaion of an appropriate outcomes for an aging population. *Spec Care Dentist*. 1993 Jan-Feb;13(1):35-9.
121. US Department of Health and Human Services. Oral Health in América: A Report of the Surgeon General -- Executive Summary. Rockville, MD: US Department of Health and Human Services, National Institute of Dental and Craniofacial Research, National Institutes of Health, 2000.
122. Inglehart MR, Bagramian RA. Oral health-related quality of life: an introduction. In: Inglehart MR, Bagramian RA, eds. *Oral Health-related Quality of Life*. Chicago: Quintessence Publishing; 2002. p. 1-6.
123. Locker D. Measuring Oral Health: A conceptual framework. *Community Dent Health*. 1988 Mar;5(1):3-18.
124. Montero J, Bravo M, Vicente MP, Galindo MP, López JF, Albaladejo A. Dimensional structure of the oral health-related quality of life in healthy Spanish workers. *Health Qual Life Outcomes*. 2010 Feb 21;8:24.
125. Brondani MA, MacEntee MI. The concept of validity in sociodental indicators and oral health-related quality-of-life measures. *Community Dent Oral Epidemiol*. 2007 Dec;35(6):472-8
126. Skaret E, Astrom AN, Haugejorden O. Oral Helth-Related Quality of Life (OHRQoL). Review of existing instruments and suggestions for use in oral health outcome research in Europe. En: *European Global Oral health Indicators Development Project*. Francia: Quintessence International; 2004. p. 99-110.
127. Cushing AM, Sheiham A, Maizels J. Developing socio-dental indicators-the social impact of dental disease. *Community Dent Health*. 1986 Mar;3(1):3-17.
128. Dolan TA, Gooch BR. Dental Health questions from the rand health insurance study. In: Slade GD, editor. *Measuring oral health and quality of life*. Chapel Hill. University of North Carolina; 1997. p. 65-70.
129. Atchison KA, Dolan TA. Development of the Geriatric Oral Health Assessment Index. *J Dent Educ*. 1990 Nov;54(11):680-7.
130. Leao A, Sheiham A. The development of a socio-dental measure of dental impacts on daily living. *Community Dent Health*. 1996 Mar;13(1):22-6.
131. Slade GD, Spencer AJ. Development and evaluation of the Oral Health Impact Profile. *Community Dental Health*. 1994 Mar;11(1):3-11.
132. Slade GD. Derivation and validation of a short-form oral health impact profile. *Community Dent Oral Epidemiol*. 1997 Aug;25(4):284-90.
133. Adulyanon S, Sheiham A. Oral impacts on daily performances. In: Slade D, editor. *Measuring oral health and quality of life*. Chapel Hill, NC: University of North Carolina; 1997. pp. 151-60.

134. Filstrup SL, Briskie D, da Fonseca M, Lawrence L, Wandera A, Inglehart MR: Early childhood caries and quality of life: child and parent perspectives. *Pediatr Dent*. 2003 Sep-Oct;25(5):431-40.
135. Pahel BT, Rozier RG, Slade GD: Parental perceptions of children's oral health: the Early Childhood Oral Health Impact Scale (ECOHIS). *Health Qual life Outcomes*. 2007 Jan 30;5:6.
136. Ramos-Gómez FJ, Huang GF, Masouredis CM, Braham RL. Prevalence and treatment costs of infant caries in Northern California. *ASDC J Dent Child*. 1996 Mar-Apr;63(2):108-12.
137. Low W, Tan S, Schwartz S. The effect of severe caries on the quality of life in young children. *Pediatr Dent*. 1999 Sep-Oct;21(6):325-6.
138. O'Brien C, Benson PE, Marshman Z. Evaluation of a quality of life measure for children with malocclusion. *J Orthod*. 2007;34(3):185-93.
139. Masood Y, Masood M, Zainul NN, Araby NB, Hussain SF, Newton T. Impact of malocclusion on oral health related quality of life in young people. *Health Qual Life Outcomes*. 2013 Feb 26;11:25
140. Locker D. Disparities in oral health-related quality of life in a population of Canadian children. *Community Dent Oral Epidemiol*. 2007; 35(5):348-56.
141. Wallander JL, Schmitt M, Koot HM. Quality of life measurement in children and adolescents: issues, instruments, and applications. *J Clin Psychol*. 2001; 57(4):571-85.
142. Talekar BS, Rozier RG, Zeldin LP. Spanish version of the Early Childhood Oral Health Impact Scale [abstract]. *J Dent Res*. 2005; 84(Special Issue A). Abstract no.2653.
143. Gherunpong S, Tsakos G, Sheiham A. Developing and evaluating an oral health-related quality of life index for children; the Child-OIDP. *Community Dent Health* 2004;21:161-9.
144. Yusuf H, Gherunpong S, Sheiham A, Tsakos G. Validation of an English version of the Child-OIDP index, an oral health-related quality of life measure for children. *Health Qual Life Outcomes*. 2006 Jul 1;4:38.
145. Cortes Martinicorena FJ, Rosel Gallardo E, Artazcoz Osés J, Bravo M, Tsakos G: Adaptation and validation for Spain of the Child-Oral Impact on Daily Performance (C-OIDP) for use with adolescents. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2010; 15(1):106-11.
146. Locker D, Jokovic A, Stephens M, Kenny D, Tompson B, Guyatt G. Family impact of child oral and oro-facial conditions. *Community Dent Oral Epidemiol*. 2002; 30(6):438-48.
147. Jokovic A, Locker D, Stephens M, Kenny D, Tompson B, Guyatt G. Validity and reliability of a questionnaire for measuring child oral-health-related quality of life. *J Dent Res*. 2002; 81(7):459-63.
148. Jokovic A, Locker D, Stephens M, Kenny D, Tompson B, Guyatt G. Measuring parental perceptions of child oral health-related quality of life. *J Public Health Dent*. 2003; 63(2):67-72.
149. Broder HL, Janal M, Wilson-Genderson M, Reisine ST, Phillips C. Reliability and validity of the Child Oral Health Impact Profile. *J Dent Res*. 2005;83(Special Issue A):2652.
150. Slade GD, Reisine ST. The child oral health impact profile: current status and future directions. *Community Dent Oral Epidemiol* 2007;35(Suppl 1):50-3.
151. Broder HL, McGrath C, Cisneros GJ. Questionnaire development: face validity and item impact testing of the Child Oral Health Impact Profile. *Community Dent Oral Epidemiol*. 2007;35 Suppl 1:8-19.
152. Jones WB. Weight gain and feeding in the neonate with cleft: a three-center study. *Cleft Palate J*. 1988 Oct;25(4):379-84.
153. Zickefoose M. Feeding problems of children with cleft palate. *Children* 1957;4:225-8.
154. Tisza VB, Gumpertz E. The parents' reaction to the birth and early care of children with cleft palate. *Pediatrics*. 1962 Jul;30:86-90.
155. Young JL, O'Riordan M, Goldstein JA, Robin NH. What information do parents of newborns with cleft lip, palate, or both want to know? *Cleft Palate Craniofac J* 2001 Jan;38(1):55-8.
156. Cohen M, Marschall MA, Schafer ME. Immediate unrestricted feeding of infants following cleft lip and palate repair. *J Craniofac Surg*. 1992 Jul;3(1):30-2.

157. Zargi M, Boltezar IH. Effects of recurrent otitis media in infancy on auditory perception and speech. *Am J Otolaryngol*. 1992 Nov-Dec;13(6):366-72.
158. Goudy S, Lott D, Canady J, Smith RJ. Conductive hearing loss and otopathology in cleft palate patients. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2006 Jun;134(6):946-8.
159. Kalcioğlu MT, Cokkeser Y, Kizilay A, Ozturan O. Follow-up of 366 ears after tympanostomy tube insertion: why is it draining? *Otolaryngol Head Neck Surg*. 2003 Apr;128(4):560-4.
160. Golz A, Goldenberg D, Netzer A, Westerman LM, Westerman ST, Fradis M, et al. Cholesteatomas associated with ventilation tube insertion. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 1999 Jul;125(7):754-7.
161. Reiter R, Haase S, Brosch S. Repaired cleft palate and ventilation tubes and their associations with cholesteatoma in children and adults. *Cleft Palate Craniofac J*. 2009 Nov;46(6):598-602.
162. Robinson PJ, Lodge S, Jones BM, Walker CC, Grant HR. The effect of palate repair on otitis media with effusion. *Plast Reconstr Surg*. 1992 Apr;89(4):640-5.
163. Updike C, Thornburg JD. Reading skills and auditory processing ability in children with chronic otitis media in early childhood. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1992 Jun;101(6):530-7.
164. Valtonen H, Dietz A, Qvarnberg Y. Long-term clinical, audiologic, and radiologic outcomes in palate cleft children treated with early tympanostomy for otitis media with effusion: a controlled prospective study. *Laryngoscope* 2005 Aug;115(8):1512-6.
165. Merrick GD, Kunjur J, Watts R, Markus AF. The effect of early insertion of grommets on the development of speech in children with cleft palates. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2007 Oct;45(7):527-33.
166. Shaw R, Richardson D, McMahon S. Conservative Management of otitis media in cleft palate. *J Craniomaxillofacial Surg*. 2003 Oct;31(5):316-20.
167. Robson AK, Blanshard JD, Jones K, Albery EH, Smith IM, Maw AR. A conservative approach to the management of otitis media with effusion in cleft palate children. *J Laryngol Otol*. 1992 Sep;106(9):788-92.
168. Sheahan P, Blayney AW, Sheahan JN, Earley MJ. Sequelae of otitis media with effusion among children with cleft lip and/or cleft palate. *Clin Otolaryngol Allied Sci*. 2002 Dec;27(6):494-500.
169. Phua YS, Salkeld LJ, de Chalain TM. Middle ear disease in children with cleft palate: Protocols for Management. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009 Feb;73(2):307-13.
170. Updike C, Thornburg JD. Reading Skills and Auditory Processing Ability in Children With Chronic Otitis Media in Early Childhood. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1992 Jun;101(6):530-7.
171. Peters AS, Grievink EH, van bon KH, Schilder AG. The effects of early bilateral otitis media with effusion on education attainment: a prospective cohort study. *J Learn Disabil*. 1994 Feb;27(2):111-21.
172. Groenem P, Crul T, Maassen B, van Bon W. Perception of voicing cues by children with early otitis media and without language impairment. *J Speech and Hear Res*. 1996 Feb;39(1):43-54.
173. Schilder AG, Snik AF, Straatman H, van den Broek P. The Effect of Otitis Media With Effusion at Preschool Age on Some Aspects of Auditory Perception at Scholl Age. *Ear Hear*. 1994 Jun;15(3):224-31.
174. Mars M, James DR, Lamabadusuriya SP. The Sri Lankan Cleft Lip and Palate Project: the unoperated cleft lip and palate. *Cleft Palate J*. 1990 Jan;27(1):3-6.
175. Padwa BL, Mulliken JB. Sequential Management of the Child with Cleft Lip and Palate. En Kaban LB, Troulis MJ, editores. *Pediatric Oral and Maxillofacial Surgery*. Saunders; 2004; 410-422.
176. Menezes R, Vieira AR. Dental anomalies as part of the cleft spectrum. *Cleft Palate Craniofac J*. 2008 Jul;45(4):414-9.
177. Williams AC, Bearn D, Mildinhal S, Murphy T, Sell D, Shaw WC et al. Cleft lip and palate care in the United Kingdom-the Clinical Standards Advisory Group (CSAG) study. Part 2: Dentofacial outcomes and patient satisfaction. *Cleft Palate Craniofac J*. 2001 Jan;38(1):24-9.
178. Tsai TP, Huang CS, Huang CC, See LC. Distribution patterns of primary and permanent dentition in children with unilateral complete cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J*. 1998 Mar;35(2):154-60.

179. Garvey MT, Barry HJ, Blake M. Supernumerary teeth – an overview of classification, diagnosis and management. *J Can Dent Assoc.* 1999 Dec;65(11):612-6.
180. Shapira Y, Kuftinec MM, Stom D. Maxillary canine-lateral incisor transportation-orthodontic management. *Am J Orthod Dentofacial Orthop.* 1989 May;95(5):439-44.
181. Ranta R. Numeric anomalies of teeth in concomitant hypodontia and hyperdontia. *J Craniofac Genet Dev Biol.* 1988;8(3):245-51.
182. Trotman CA, Faraway JJ, Essick GK. Three-dimensional nasolabial displacement during movement in repaired cleft lip and palate patients. *Plast Reconstr Surg.* 2000 Apr;105(4):1273-83.
183. Khattak ZG, Benington PC, Khambay BS, Green L, Walker F, Ayoub AF. An assessment of the quality of care provided to orthognathic surgery patients through a multidisciplinary clinic. *J Craniomaxillofac Surg.* 2012 Apr;40(3):243-7.
184. Rustemeyer J, Gregersen J. Quality of Life in orthognathic surgery patients: postsurgical improvements in aesthetics and self-confidence. *J Craniomaxillofac Surg.* 2012 Jul;40(5):400-4.
185. Marcusson A, Paulin G, Ostrup L: Facial appearance in adults who had cleft lip and palate treated in childhood. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg.* 2002;36(1):16-23.
186. Ritter K, Trotman CA, Phillips C: Validity of subjective evaluations for the assessment of lip scarring and impairment. *Cleft Palate Craniofac J.* 2002 Nov;39(6):587-96.
187. Fudalej P, Katsaros C, Bongaarts C, Dudkiewicz Z, Kuijpers-Jagtman AM: Nasolabial aesthetics in children with complete unilateral cleft lip and palate after 1- versus 3-stage treatment protocols. *J Oral Maxillofac Surg* 2009 Aug;67(8): 1661-6.
188. Marsh JL. When is enough enough? Secondary surgery for cleft lip and palate patients. *Clin Plast Surg.* 1990;17:37-47.
189. Jocelyn LJ, Penko MA, Rode HL. Cognition, communication, and hearing in young children with cleft lip and palate and in control children: a longitudinal study. *Pediatrics.* 1996 Apr;97(4):529-34.
190. Broder HL, Smith FB, Strauss RP. Habilitation of patients with clefts: parent and child ratings of satisfaction with appearance and speech. *Cleft Palate Craniofac J.* 1992 May;29(3):262-7.
191. Hardin-Jones MA, Jones DL. Speech production of preschoolers with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2005 Jan;42(1):7-13.
192. Henningsson G, Kuehn DP, Sell D, Sweeney T, Trost-Cardamone JE et al. Speech Parameters Group. Universal parameters for reporting speech outcomes in individuals with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2008 Jan;45(1):1-17.
193. Endriga MC, Kapp-Simon KA. Psychological issues in craniofacial care: state of the art. *Cleft Palate Craniofac J.* 1999 Jan;36(1):3-11.
194. Hunt O, Burden D, Hepper P, Johnston C. The psychosocial effects of cleft lip and palate: a systematic review. *Eur J Orthod.* 2005 Jun;27(3):274-85.
195. Turner SR, Rumsey N, Sandy JR. Psychological aspects of cleft lip and palate. *Eur J Orthod.* 1998 Aug;20(4):407-15.
196. Noar JH. Questionnaire survey of attitudes and concerns of patients with cleft lip and palate and their parents. *Cleft Palate Craniofac J.* 1991 Jul;28(3): 279-84.
197. Collet BR, Speltz ML. Social-Emotion Development of Infants and Young Children with orofacial Clefts. *Infants and Young Children* 2006;19(4): 262-91.
198. Synder HT, Bilboul MJ, Pope AW. Psychosocial Adjustment in Adolescents With Craniofacial Anomalies: A Comparison of Parent and Self-Reports. *Cleft Palate-Craniofac J.* 2005 Sep;42(5): 548-55.
199. Rajmil L, Serra-Sutton V, Fernandez-Lopez JA, Berra S, Aymerich M, Cieza A, et al. [The Spanish version of the German health-related quality of life questionnaire for children and adolescents: the Kindl]. *An Pediatr (Barc).* 2004 Jun;60(6):514-21.
200. Fernández-López JA, Fernández Fidalgo M, Cieza A, Ravens-Sieberer U. [Measuring health-related quality of life in children and adolescents: preliminary validation and reliability of the Spanish version of the KINDL questionnaire]. *Aten Primaria.* 2004 May 15;33(8):434-42.
201. Lopez R, Baelum V. Spanish version of the Oral Health Impact Profile (OHIP-Sp). *BMC Oral Health.* 2006 Jul 7;6:11.



202. Stein REK, Riessman CK: The development of an Impact-on-Family Scale: Preliminary findings. *Med Care*. 1980 Apr;18(4):465-72.
203. Stein REK, Jessop DJ. Measuring health variables among Hispanic and non - Hispanic children with chronic condition. *Public Health Rep*. 1989;104:377-84
204. Alvarado Moreno MC. Evaluación del impacto familiar del asma bronquial infantil. Tesis Doctoral. Universitat Autònoma de Barcelona. Barcelona; 2002.
205. Boudas R, Jégu J, Grollemund B, Quentel E, Danion-Grilliat A, Velten M. Cross-cultural French adaptation and validation of the Impact On Family Scale (IOFS). *Health Qual Life Outcomes*. 2013 Apr 23;11(1):67.
206. Long RE Jr, Hathaway R, Daskalogiannakis J, Mercado A, Russell K, Cohen M, et al. The Americleft study: an intercenter study of treatment outcomes for patients with unilateral cleft lip and palate part 1. Principles and study design. *Cleft Palate Craniofac J*. 2011 May;48(3):239-43.
207. Jensen BL, Kreiborg S, Dahl E, Fogh-Andersen P. Cleft lip and palate in Denmark, 1976-1981: epidemiology, variability, and early somatic development. *Cleft Palate J*. 1988 Jul;25(3):258-69.
208. García Romero R, Martín de Vicente C, Gracia Cervero E, Gros Esteban D, Ureña Hornos T, Labarta Aizpun JI et al. [Cleft palate and cleft lip. Clinical review]. *Cir Pediatr*. 2004 Oct;17(4):171-4.
209. Gundlach KK, Maus C. Epidemiological studies on the frequency of clefts in Europe and world-wide. *J Craniomaxillofac Surg*. 2006 Sep;34 Suppl 2:1-2.
210. Wyszynski DF, Sárközi A, Czeizel AE. Oral clefts with associated anomalies: methodological issues. *Cleft Palate Craniofac J*. 2006 Jan;43(1):1-6.
211. Calzolari E, Barisic I, Loane M, Morris J, Wellesley D, Dolk H et al. Epidemiology of multiple congenital anomalies in Europe: a EUROCAT population-based registry study. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol*. 2014 Apr;100(4):270-6.
212. Rodríguez Dehli C, Mosquera Tenreiro C, García López E, Fernández Toral J, Rodríguez Fernández A, Riaño Galán I et al. [The epidemiology of cleft lip and palate over the period 1990-2004 in Asturias]. *An Pediatr (Barc)*. 2010 Sep;73(3):132-7.
213. Dixon MJ, Marazita ML, Beaty TH, Murray JC. Cleft lip and palate: understanding genetic and environmental influences. *Nat Rev Genet*. 2011;12:167-178.
214. Calzonari E, Pierini A, Astolfi G, Bianchi F, Neville AJ, Rivieri F. Associated anomalies in multi-malformed infants with cleft lip and palate: An epidemiologic study of nearly 6 million births in 23 EUROCAT registries. *Am J Med Genet A*. 2007;143:528-37.
215. Shaw WC, Asher-McDade C, Brattström V, Dahl E, McWilliam J, Mølsted K, et al. A six-center international study of treatment outcome in patients with clefts of the lip and palate: Part 1. Principles and study design. *Cleft Palate Craniofac J*. 1992 Sep;29(5):393-7.
216. American Cleft-Palate Craniofacial Association. Team standards self assessment instrument. American Cleft Palate Craniofacial Association, Chapel Hill, NC; 1996.
217. González Landa G. [Quality standards in the treatment of lip/palate cleft]. *Cir Pediatr*. 1997 Jul;10(3):89.
218. González Landa G, Sánchez-Ruiz I, Pérez González V, López Cedrún JL. [Results of a questionnaire on the treatment of cleft lip and palate in Spain]. *Cir Pediatr*. 1999 Jul;12(3):122-6.
219. Sandy J, Williams A, Mildinhal S, Murphy T, Bearn D, Shaw B, et al. The Clinical Standards Advisory Group (CSAG) Cleft Lip and Palate Study. *Br J Orthod*. 1998 Feb;25(1):21-30.
220. Scott JK, Leary SD, Ness AR, Sandy JR, Persson M, Kilpatrick N, et al. Centralization of services for children born with orofacial clefts in the United Kingdom: a cross-sectional survey. *Cleft Palate Craniofac J*. 2014 Sep;51(5):e102-9.
221. Kirschner RE, Randall P, Wang P, Jawad AF, Duran M, Huang K, et al. Cleft palate repair at 3 to 7 months of age. *Plast Reconstr Surg*. 2000 May;105(6):2127-32.
222. Lee YH, Liao YF. Hard palate-repair technique and facial growth in patients with cleft lip and palate: a systematic review. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2013 Dec;51(8):851-7.

223. Liao YF, Yang IY, Wang R, Yun C, Huang CS. Two-stage palate repair with delayed hard palate closure is related to favorable maxillary growth in unilateral cleft lip and palate. *Plast Reconstr Surg.* 2010 May;125(5):1503-10.
224. LaRossa D. The state of the art in cleft palate surgery. *Cleft Palate Craniofac J.* 2000 May;37(3):225-8.
225. Holland S, Gabbay JS, Heller JB, O'Hara C, Hurwitz D, Ford MD, et al. Delayed closure of the hard palate leads to speech problems and deleterious maxillary growth. *Plast Reconstr Surg.* 2007 Apr 1;119(4):1302-10.
226. Lees VC, Pigott RW. Early postoperative complications in primary cleft lip and palate surgery--how soon may we discharge patients from hospital? *Br J Plast Surg.* 1992 Apr;45(3):232-4.
227. Eaton AC, Marsh JL, Pilgram TK. Does reduced hospital stay affect morbidity and mortality rates following cleft lip and palate repair in infancy? *Plast Reconstr Surg.* 1994 Dec;94(7):911-5; discussion 916-8.
228. Canady JW, Glowacki R, Thompson SA, Morris HL. Complication outcomes based on preoperative admission and length of stay for primary palatoplasty and cleft lip/palate revision in children aged 1 to 6 years. *Ann Plast Surg.* 1994 Dec;33(6):576-80.
229. Nguyen C, Hernandez-Boussard T, Davies SM, Bhattacharya J, Khosla RK, Curtin CM. Cleft palate surgery: an evaluation of length of stay, complications, and costs by hospital type. *Cleft Palate Craniofac J.* 2014 Jul;51(4):412-9.
230. Cronin ED, Williams JL, Shayani P, Roesel JF. Short stay after cleft palate surgery. *Plast Reconstr Surg.* 2001 Sep 15;108(4):838-40; discussion 841.
231. Bateman MC, Conejero JA, Mooney EK, Rothkopf DM. Short-stay cleft palate surgery with intraoperative dexamethasone and marcaine. *Ann Plast Surg.* 2006 Sep;57(3):245-7.
232. Stal S, Hollier L. Correction of secondary cleft lip deformities. *Plast Reconstr Surg.* 2002 Apr 15;109(5):1672-81.
233. Ruiz-Rodríguez R, López-Noriega JC. Reoperations in cleft lip and cleft palate treatment. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2011 Feb;23(1):169-76.
234. Becker M, Hansson E. Low rate of fistula formation after Sommerlad palatoplasty with or without lateral incisions: an analysis of risk factors for formation of fistulas after palatoplasty. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2013 May;66(5):697-703.
235. Hardwicke JT, Landini G, Richard BM. Fistula incidence after primary cleft palate repair: a systematic review of the literature. *Plast Reconstr Surg.* 2014 Oct;134(4):618e-27e.
236. Wilhelmi BJ, Appelt EA, Hill L, Blackwell SJ. Palatal fistulas: rare with the two-flap palatoplasty repair. *Plast Reconstr Surg.* 2001 Feb;107(2):315-8.
237. Emory RE Jr, Clay RP, Bite U, Jackson IT. Fistula formation and repair after palatal closure: an institutional perspective. *Plast Reconstr Surg.* 1997 May;99(6):1535-8.
238. Muzaffar AR, Byrd HS, Rohrich RJ, Johns DF, LeBlanc D, Beran SJ, et al. Incidence of cleft palate fistula: an institutional experience with two-stage palatal repair. *Plast Reconstr Surg.* 2001 Nov;108(6):1515-8.
239. Helling ER, Dev VR, Garza J, Barone C, Nelluri P, Wang PT. Low fistula rate in palatal clefts closed with the Furlow technique using decellularized dermis. *Plast Reconstr Surg.* 2006 Jun;117(7):2361-5.
240. Aldekhayel SA, Sinno H, Gilardino MS. Acellular dermal matrix in cleft palate repair: an evidence based review. *Plast Reconstr Surg.* 2012 Jul;130(1):177-82.
241. Bearn D, Mildinhal S, Murphy T, Murray JJ, Sell D, Shaw WC, et al. Cleft lip and palate care in the United Kingdom--the Clinical Standards Advisory Group (CSAG) Study. Part 4: outcome comparisons, training, and conclusions. *Cleft Palate Craniofac J.* 2001 Jan;38(1):38-43.
242. Webb AA, Watts R, Read-Ward E, Hodgkins J, Markus AF. Audit of a multidisciplinary approach to the care of children with unilateral and bilateral cleft lip and palate. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2001 Jun;39(3):182-8.
243. Inman DS, Thomas P, Hodgkinson PD, Reid CA. Oro-nasal fistula development and velopharyngeal insufficiency following primary cleft palate surgery--an audit of 148 children born between 1985 and 1997. *Br J Plast Surg.* 2005 Dec;58(8):1051-4.
244. Queiroz Herkrath AP, Herkrath FJ, Rebelo MA, Vettore MV. Measurement of health-related and oral health-related quality of life among individuals with nonsyndromic orofacial clefts: a systematic review and meta-analysis. *Cleft Palate Craniofac J.* 2015 Mar;52(2):157-72.



245. Munz SM, Edwards SP, Inglehart MR. Oral health-related quality of life, and satisfaction with treatment and treatment outcomes of adolescents/young adults with cleft lip/palate: an exploration. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2011 Aug;40(8):790-6.
246. Piombino P, Ruggiero F, Dell'Aversana Orabona G, Scopelliti D, Bianchi A, De Simone F, et al. Development and validation of the quality-of-life adolescent cleft questionnaire in patients with cleft lip and palate. *J Craniofac Surg*. 2014 Sep;25(5):1757-61.
247. Patjanasontorn N, Pradubwong S, Mongkoltawornchai S, Phetcharat T, Chowchuen B. Development and reliability of the THAICLEFT Quality of Life Questionnaire for children with cleft lip/palate and families. *J Med Assoc Thai*. 2010 Oct;93 Suppl 4:S16-8.
248. Klassen AF, Tsangaris E, Forrest CR, Wong KW, Pusic AL, Cano SJ, et al. Quality of life of children treated for cleft lip and/or palate: a systematic review. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*. 2012 May;65(5):547-57.
249. Eckstein DA, Wu RL, Akinbiyi T, Silver L, Taub PJ. Measuring quality of life in cleft lip and palate patients: currently available patient-reported outcomes measures. *Plast Reconstr Surg*. 2011 Nov;128(5):518e-526e.
250. Varni JW, Limbers CA, Burwinkle TM. Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL 4.0 Generic Core Scales. *Health Qual Life Outcomes*. 2007 Jul 16;5:43.
251. Bannink N, Maliepaard M, Raat H, Joosten KF, Mathijssen IM. Health-related quality of life in children and adolescents with syndromic craniosynostosis. *J Plast Reconstr Aesthet Surg*. 2010 Dec;63(12):1972-81.
252. Chapman KL, Graham KT, Gooch J, Visconti C. Conversational skills of preschool and school-age children with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J*. 1998 Nov;35(6):503-16.
253. Lockhart E. Mental health needs of children and adolescents with cleft lip and/or palate. *Clin Child Psychol Psychiatry*. 2003;8:7-16.
254. Kapp-Simon K. Self-concept of primary-school-age children with cleft lip, cleft palate, or both. *Cleft Palate J*. 1986 Jan;23(1):24-7.
255. Broder H, Strauss RP. Self-concept of early primary school age children with visible or invisible defects. *Cleft Palate J*. 1989 Apr;26(2):114-7.
256. Collett BR, Keich Cloonan Y, Speltz ML, Anderka M, Werler MM. Psychosocial functioning in children with and without orofacial clefts and their parents. *Cleft Palate Craniofac J*. 2012 Jul;49(4):397-405.
257. Gussy M, Kilpatrick N. The self-concept of adolescents with cleft lip and palate: a pilot study using a multidimensional/hierarchical measurement instrument. *Int J Paediatr Dent*. 2006 Sep;16(5):335-41.
258. Persson M, Aniansson G, Becker M, Svensson H. Self-concept and introversion in adolescents with cleft lip and palate. *Scand J Plast Reconstr Surg Hand Surg*. 2002;36(1):24-7.
259. Rumsey N, Harcourt D. *The psychology of appearance*. Maidenhead, England.: Open University Press; 2005.
260. Semb G, Brattström V, Mølsted K, Prah-Andersen B, Zuurbier P, Rumsey N, et al. The Eurocleft study: intercenter study of treatment outcome in patients with complete cleft lip and palate. Part 4: relationship among treatment outcome, patient/parent satisfaction, and the burden of care. *Cleft Palate Craniofac J*. 2005 Jan;42(1):83-92.
261. Hunt O, Burden D, Hepper P, Stevenson M, Johnston C. Self-reports of psychosocial functioning among children and young adults with cleft lip and palate. *Cleft Palate Craniofac J*. 2006 Sep;43(5):598-605.
262. Collett BR, Speltz ML. Social-emotional development of infants and Young children with orofacial clefts. *Infants & Young Children* 2006; 19(4):262-91.
263. Antonarakis GS, Patel RN, Tompson B. Oral health-related quality of life in non-syndromic cleft lip and/or palate patients: a systematic review. *Community Dent Health*. 2013 Sep;30(3):189-95.
264. Broder HL, Wilson-Genderson M. Reliability and convergent and discriminant validity of the Child Oral Health Impact Profile (COHIP Child's version). *Community Dent Oral Epidemiol*. 2007 Aug;35 Suppl 1:20-31.
265. Bos A, Prah C. Oral health-related quality of life in Dutch children with cleft lip and/or palate. *Angle Orthod*. 2011 Sep;81(5):865-71.

266. Peterson-Falzone SJ. The relationship between timing of cleft palate surgery and speech outcome: what have we learned, and where do we stand in the 1990s? *Semin Orthod.* 1996 Sep;2(3):185-91.
267. Sinclair S. Health-Related quality of life for children with cleft lip and/or palate. Manuscript for the Degree of Doctor Of Philosophy in Nursing. Honolulu, Hawaii: University of Hawaii at Manoa; 2011.
268. Hunt O, Burden D, Hepper P, Stevenson M, Johnston C. Parent reports of the psychosocial functioning of children with cleft lip and/or palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2007 May;44(3):304-11.
269. Tobiasen JM, Hiebert JM. Parents' tolerance for the conduct problems of the child with cleft lip and palate. *Cleft Palate J.* 1984 Apr;21(2):82-5.
270. Wilson-Genderson M, Broder HL, Phillips C. Concordance between caregiver and child reports of children's oral health-related quality of life. *Community Dent Oral Epidemiol.* 2007 Aug;35 Suppl 1:32-40.
271. Bradbury E. Cleft lip and palate surgery: the need for individual and family counselling. *Br J Hosp Med.* 1997 Apr 16-May 6;57(8):366-7.
272. Broder HL, Smith FB, Strauss RP. Effects of visible and invisible orofacial defects on self-perception and adjustment across developmental eras and gender. *Cleft Palate Craniofac J.* 1994 Nov;31(6):429-36.
273. Millard T, Richman LC. Different cleft conditions, facial appearance, and speech: relationship to psychological variables. *Cleft Palate Craniofac J.* 2001 Jan;38(1):68-75.
274. Werner H, Latal B, Valsangiacomo Buechel E, Beck I, Landolt MA. The impact of an infant's severe congenital heart disease on the family: a prospective cohort study. *Congenit Heart Dis.* 2014 May-Jun;9(3):203-10.
275. Hardy KK, Bonner MJ, Masi R, Hutchinson KC, Willard VW, Rosoff PM. Psychosocial functioning in parents of adult survivors of childhood cancer. *J Pediatr Hematol Oncol.* 2008 Feb;30(2):153-9.
276. Thon A, Ullrich G. Disease impact and disease-unrelated strain in parents of children with rheumatic disease: is there an influence on disease-related information needs? *Disabil Rehabil.* 2010;32(2):134-41.
277. Johansson B, Ringsberg KC. Parents' experiences of having a child with cleft lip and palate. *J Adv Nurs.* 2004 Jul;47(2):165-73.
278. Schmidt S, Petersen C, Bullinger M. Coping with chronic disease from the perspective of children and adolescents--a conceptual framework and its implications for participation. *Child Care Health Dev.* 2003 Jan;29(1):63-75.
279. Krueckeberg SM, Kapp-Simon KA, Ribordy SC. Social skills of preschoolers with and without craniofacial anomalies. *Cleft Palate Craniofac J.* 1993 Sep;30(5):475-81.
280. Richman LC, Millard T. Brief report: cleft lip and palate: longitudinal behavior and relationships of cleft conditions to behavior and achievement. *J Pediatr Psychol.* 1997 Aug;22(4):487-94.
281. Murray L, Arteché A, Bingley C, Hentges F, Bishop DV, Dalton L, et al. Cleft Lip and Palate Study team. The effect of cleft lip on socio-emotional functioning in school-aged children. *J Child Psychol Psychiatry.* 2010 Jan;51(1):94-103.
282. Berger ZE, Dalton LJ. Coping with a cleft: psychosocial adjustment of adolescents with a cleft lip and palate and their parents. *Cleft Palate Craniofac J.* 2009 Jul;46(4):435-43.



IX

ANEXO

9. ANEXO

9. 1. TABULACIÓN ESCALAS POR ÍTEMS

9. 1. 1. Cuestionario kiddy-KINDL fisurados

ÍTEMS CUESTIONARIO KINDL: niños fisurados

	Total		Nunca		Alguna Vez		Muchas veces	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
Durante la semana pasada me he sentido enfermo/a	171	100,0%	7	4,1%	37	21,6%	127	74,3%
Durante la semana pasada he tenido dolor de cabeza o dolor de estomago	171	100,0%	2	1,2%	40	23,4%	129	75,4%
Durante la semana pasada me he reído y divertido mucho	171	100,0%	3	1,8%	40	23,4%	128	74,9%
Durante la semana pasada me he aburrido mucho	171	100,0%	8	4,7%	44	25,7%	119	69,6%
Durante la semana pasada me he sentido orgulloso/a de mi mismo/a	171	100,0%	10	5,8%	60	35,1%	101	59,1%
Durante la semana pasada me he sentido bien con mi amigo mismo/a	171	100,0%	6	3,5%	58	33,9%	107	62,6%
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis padres	171	100,0%	9	5,3%	57	33,3%	105	61,4%
Durante la semana pasada me he sentido a gusto en casa	171	100,0%	4	2,3%	55	32,2%	112	65,5%
Durante la semana pasada he jugado con amigos/as	171	100,0%	4	2,3%	41	24,0%	126	73,7%
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis amigos/as	171	100,0%	3	1,8%	58	33,9%	110	64,3%

La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, he podido hacer bien las tareas en la guardería/ colegio	171	100,0%	5	2,9%	47	27,9%	119	69,6%
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, me lo he pasado bien en la guardería/ colegio	171	100,0%	5	2,9%	38	22,2%	128	74,9%
Durante la semana pasada he tenido miedo de que mi enfermedad empeorase	171	100,0%	4	2,3%	46	26,9%	121	70,8%
Durante la semana pasada me he encontrado triste debido a mi enfermedad	171	100,0%	29	17,0%	63	36,8%	79	46,2%
Durante la semana pasada me las he arreglado bien con mi enfermedad	171	100,0%	0	,0%	47	27,9%	124	72,5%
Durante la semana pasada mis padres me han tratado como a un niño pequeño por culpa de mi enfermedad	171	100,0%	9	5,3%	71	41,5%	91	53,2%
Durante la semana pasada no he querido que nadie se diera cuenta de mi enfermedad	171	100,0%	21	12,3%	78	45,6%	72	42,1%
Durante la semana pasada me he perdido actividades en el colegio por culpa de mi enfermedad	171	100,0%	0	,0%	43	25,1%	128	74,9%

ÍTEMES CUESTIONARIO KINDL (1-Nunca; 3-Muchas veces): niños fisurados

	N válido	Media	Desviación típica
Durante la semana pasada me he sentido enfermo/a	171	2,70	,54
Durante la semana pasada he tenido dolor de cabeza o dolor de estomago	171	2,74	,46
Durante la semana pasada me he reído y divertido mucho	171	2,73	,48
Durante la semana pasada me he aburrido mucho	171	2,65	,57
Durante la semana pasada me he sentido orgulloso/a de mi mismo/a	171	2,53	,61
Durante la semana pasada me he sentido bien conmigo mismo/a	171	2,59	,56
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis padres	171	2,56	,59
Durante la semana pasada me he sentido a gusto en casa	171	2,63	,53

Durante la semana pasada he jugado con amistosas	171	2,71	,50
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis amistosas	171	2,63	,52
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guarderia, he podido hacer bien las tareas en la guarderia del colegio	171	2,67	,53
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guarderia, me lo he pasado bien en la guarderia del colegio	171	2,72	,51
Durante la semana pasada he tenido miedo de que mi enfermedad empeorase	171	2,68	,51
Durante la semana pasada me he encontrado triste debido a mi enfermedad	171	2,29	,74
Durante la semana pasada me las he arreglado bien con mi enfermedad	171	2,73	,45
Durante la semana pasada mis padres me han tratado como a un niño pequeño por culpa de mi enfermedad	171	2,48	,60
Durante la semana pasada no he querido que nadie se diera cuenta de mi enfermedad	171	2,30	,68
Durante la semana pasada me he perdido actividades en el colegio por culpa de mi enfermedad	171	2,75	,44

9. 1. 2. Cuestionario kiddy-KINDL niños sanos
ITEMS CUESTIONARIO KINDL: niños sanos

	Total		Nunca		Alguna Vez		Muchas veces	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
Durante la semana pasada me he sentido enfermo/a	186	100,0%	5	2,7%	47	25,3%	134	72,0%
Durante la semana pasada he tenido dolor de cabeza o dolor de estomago	186	100,0%	5	2,7%	43	23,1%	138	74,2%
Durante la semana pasada me he reido y divertido mucho	186	100,0%	4	2,2%	42	22,6%	140	75,3%
Durante la semana pasada me he aburrido mucho	186	100,0%	5	2,7%	44	23,7%	137	73,7%
Durante la semana pasada me he sentido orgulloso/a de mí mismo/a	186	100,0%	5	2,7%	41	22,0%	140	75,3%
Durante la semana pasada me he sentido bien conmigo mismo/a	186	100,0%	12	6,5%	48	25,8%	126	67,7%
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis padres	186	100,0%	12	6,5%	51	27,4%	123	66,1%
Durante la semana pasada me he sentido a gusto en casa	186	100,0%	5	2,7%	51	27,4%	130	69,9%
Durante la semana pasada he jugado con amigos/as	186	100,0%	5	2,7%	54	29,0%	127	68,3%
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis amigos/as	186	100,0%	7	3,8%	53	28,5%	126	67,7%
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, he podido hacer bien las tareas en la guardería/ el colegio	186	100,0%	6	3,2%	53	28,5%	127	68,3%
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, me lo he pasado bien en la guardería/ el colegio	186	100,0%	3	1,6%	41	22,0%	142	76,3%

ÍTEMES CUESTIONARIO KINDL (1-Nunca; 3-Muchas veces): niños sanos

	N válido	Media	Desviación típica
Durante la semana pasada me he sentido enfermola	186	2,69	,52
Durante la semana pasada he tenido dolor de cabeza o dolor de estomago	186	2,72	,51
Durante la semana pasada me he reido y divertido mucho	186	2,73	,49
Durante la semana pasada me he aburrido mucho	186	2,71	,51
Durante la semana pasada me he sentido orgulloso/a de mi mismo/a	186	2,73	,50
Durante la semana pasada me he sentido bien conmigo mismo/a	186	2,61	,61
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis padres	186	2,60	,61
Durante la semana pasada me he sentido a gusto en casa	186	2,67	,53
Durante la semana pasada he jugado con amigos/as	186	2,66	,53
Durante la semana pasada me he llevado bien con mis amigos/as	186	2,64	,55
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guarderia, he podido hacer bien las tareas en la guarderia/el colegio	186	2,65	,54
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guarderia, me lo he pasado bien en la guarderia/el colegio	186	2,75	,47

9. 1. 3. Cuestionario KINDL-p padres niños fisurados

ÍTEMES CUESTIONARIO KINDL PADRES: niños fisurados

	Total		Nunca		Casi Nunca		Algunas veces		Casi siempre		Siempre	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido enfermo	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	17	9,9%	38	22,2%	116	67,8%
Durante la semana pasada a mi hijo/a le ha dolido la cabeza o el estómago	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	37	21,6%	51	29,8%	83	48,5%
Durante la semana pasada mi hijo ha estado cansado/a y agotado/a	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	35	20,5%	48	28,1%	87	50,9%
Durante la semana pasada mi hijo ha tenido mucha fuerza y energía	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	28	16,4%	46	26,9%	96	56,1%
Durante la semana pasada mi hijo se ha reído y divertido mucho	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	20	11,7%	47	27,5%	104	60,8%
Durante la semana pasada no ha tenido ganas para nada	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	9	5,3%	40	23,4%	122	71,3%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido solo/a	171	100,0%	1	,6%	1	,6%	51	29,8%	44	25,7%	74	43,3%
Durante la semana pasada mi hijo/a ha tenido miedo y se ha sentido inseguro/a	171	100,0%	0	,0%	2	1,2%	49	28,7%	43	25,1%	77	45,0%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido orgulloso de sí mismo	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	44	25,7%	52	30,4%	75	43,9%

Durante la semana pasada mi hijo/a se ha gustado a sí mismo	171	100,0%	6	3,5%	8	4,7%	81	47,4%	33	19,3%	43	25,1%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido bien consigo mismo	171	100,0%	6	3,5%	2	1,2%	88	51,5%	32	18,7%	43	25,1%
Durante la semana pasada mi hijo/a ha tenido muchas buenas ideas	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	33	19,3%	60	35,1%	77	45,0%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha llevado bien con nosotros	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	33	19,3%	45	26,3%	93	54,4%
Durante la semana pasada mi hijo se ha sentido a gusto en casa	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	33	19,3%	50	29,2%	88	51,5%
Durante la semana pasada hemos tenido fuertes discusiones o peleas en casa	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	18	10,5%	39	22,8%	114	66,7%
Durante la semana pasada mi hijo/a ha sentido que no le dejábamos tomar decisiones	171	100,0%	2	1,2%	3	1,8%	63	36,8%	48	28,1%	55	32,2%
Durante la semana pasada mi hijo/a ha jugado con amigos/as	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	16	9,4%	50	29,2%	104	60,8%
Durante la semana pasada mi hijo/a ha caído bien a los demás	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	40	23,4%	52	30,4%	78	45,6%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha llevado bien con sus amigos/as	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	46	26,9%	43	25,1%	81	47,4%
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido diferente de los demás	171	100,0%	7	4,1%	12	7,0%	72	42,1%	36	21,1%	44	25,7%

La semana pasada donde mi hija estuvo en el preescolar o guardería, mi hija ha podido hacer bien las tareas escolares	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	17	9,9%	38	22,2%	116	67,8%
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, mi hijo se lo ha pasado bien en la guardería/el colegio	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	42	24,6%	47	27,5%	82	48,0%
La semana pasada donde mi hija estuvo en el preescolar o guardería, mi hijo se ha alegrado de ir a la guardería/el colegio	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	36	21,1%	55	32,2%	80	46,8%
La semana pasada donde mi hija estuvo en el preescolar o guardería, mi hijo ha cometido muchos errores en sus tareas o deberes	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	6	3,5%	44	25,7%	121	70,8%
Durante la semana pasada ha tenido mi hijo miedo de que su enfermedad se empeore	171	100,0%	1	,6%	0	,0%	62	36,3%	35	20,5%	73	42,7%
Durante la semana pasada debido a la enfermedad, estubo mi hijo triste	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	44	25,7%	37	21,6%	90	52,6%
Durante la semana pasada mi hijo no ha podido manejar bien su enfermedad	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	38	22,2%	47	27,5%	86	50,3%
Durante la semana pasada he tratado mi hijo como un niño debido a su enfermedad	171	100,0%	22	12,9%	14	8,2%	88	51,5%	23	13,5%	24	14,0%
Durante la semana pasada, mi hijo quería que nadie se enterara de su enfermedad	171	100,0%	12	7,0%	8	4,7%	81	47,4%	33	19,3%	37	21,6%
Durante la semana pasada, ha perdido mi hijo actividades en el preescolar o guardería por causa de su enfermedad	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	41	24,0%	56	32,7%	74	43,3%

ÍTEMES CUESTIONARIO KINDL PADRES (1-Nunca, 5-Siempre): niños fisurados

	N válido	Media	Desviación típica
Durante la semana pasada mi hijola se ha sentido enfermo	171	4,58	,67
Durante la semana pasada a mi hijola le ha dolido la cabeza o el estomago	171	4,27	,80
Durante la semana pasada mi hijo ha estado cansadola y agotadola	171	4,29	,81
Durante la semana pasada mi hijo ha tenido mucha fuerza y energia	171	4,39	,78
Durante la semana pasada mi hijo se ha reido y divertido mucho	171	4,49	,70
Durante la semana pasada no ha tenido ganas para nada	171	4,66	,58
Durante la semana pasada mi hijola se ha sentido solola	171	4,11	,89
Durante la semana pasada mi hijola ha tenido miedo y se ha sentido inseguro/a	171	4,14	,88
Durante la semana pasada mi hijola se ha sentido orgulloso de si mismo	171	4,18	,82
Durante la semana pasada mi hijola se ha gustado a si mismo	171	3,58	1,03
Durante la semana pasada mi hijola se ha sentido bien consigo mismo	171	3,61	,99
Durante la semana pasada mi hijola ha tenido muchas buenas ideas	171	4,25	,78
Durante la semana pasada mi hijola se ha llevado bien con nosotros	171	4,35	,79
Durante la semana pasada mi hijo se ha sentido a gusto en casa	171	4,32	,78
Durante la semana pasada hemos tenido fuertes discusiones o peleas en casa	171	4,56	,68
Durante la semana pasada mi hijola ha sentido que no le dejabamos tomar decisiones	171	3,88	,93
Durante la semana pasada mi hijola ha jugado con amigostas	171	4,50	,69

Durante la semana pasada mi hijo/a ha caído bien a los demás	171	4,21	,82
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha llevado bien con sus amigas/as	171	4,19	,86
Durante la semana pasada mi hijo/a se ha sentido diferente de los demás	171	3,57	1,07
La semana pasada donde mi hijo/a estuvo en el preescolar o guardería, mi hijo/a ha podido hacer bien las tareas escolares	171	4,58	,67
La semana pasada donde estuve en el preescolar o guardería, mi hijo/a se lo ha pasado bien en la guardería/colegio	171	4,23	,82
La semana pasada donde mi hijo/a estuvo en el preescolar o guardería, mi hijo/a se ha alegrado de ir a la guardería/colegio	171	4,26	,78
La semana pasada donde mi hijo/a estuvo en el preescolar o guardería, mi hijo/a ha cometido muchos errores en sus tareas o deberes	171	4,67	,54
Durante la semana pasada ha tenido mi hijo/a miedo de que su enfermedad se empeore	171	4,05	,92
Durante la semana pasada debido a la enfermedad, estuve mi hijo/a triste	171	4,27	,85
Durante la semana pasada mi hijo/a no ha podido manejar bien su enfermedad	171	4,28	,81
Durante la semana pasada he tratado mi hijo/a como un niño debido a su enfermedad	171	3,08	1,14
Durante la semana pasada, mi hijo/a quería que nadie se enterara de su enfermedad	171	3,44	1,10
Durante la semana pasada, ha perdido mi hijo/a actividades en el preescolar o guardería por causa de su enfermedad	171	4,19	,80

9. 1. 4. Cuestionario COHIP padres niños fisurados

ITEMS CUESTIONARIO C-OHIP 14: padres niños fisurados

	Total		Nunca		Rara vez		A veces		A menudo		Muy a menudo	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
En el último año, ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes?	171	100,0%	74	43,3%	16	9,4%	27	15,8%	38	22,2%	16	9,4%
En el último año, ¿ha notado peor el sabor o el gusto de las comidas por tener algún problema en la boca o dientes?	171	100,0%	116	67,8%	23	13,5%	29	17,0%	3	1,8%	0	,0%
¿Le han dolido sus dientes o boca en el último años?	171	100,0%	99	57,9%	16	9,4%	40	23,4%	16	9,4%	0	,0%
¿Ha notado molestias para comer alguna comida por problemas en sus dientes o boca?	171	100,0%	87	50,9%	20	11,7%	43	25,1%	19	11,1%	2	1,2%
¿Ha estado preocupado debido a problemas con tus dientes o boca?	171	100,0%	55	32,2%	11	6,4%	42	24,6%	40	23,4%	23	13,5%
¿Le ha sentido nervioso debido a problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	70	40,9%	9	5,3%	43	25,1%	36	21,1%	13	7,6%
¿Ha tenido problemas para comer bien lo que quería por problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	110	64,3%	33	19,3%	26	15,2%	2	1,2%	0	,0%

¿Ha tenido que parar de comer alguna vez por problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	120	70,2%	24	14,0%	26	15,2%	1	,6%	0	,0%
¿Ha tenido algun problema para descansar o dormir bien debido a problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	122	71,3%	20	11,7%	27	15,8%	2	1,2%	0	,0%
¿Ha sentido vergüenza de sus dientes en el último año?	171	100,0%	75	43,9%	14	8,2%	40	23,4%	29	17,0%	13	7,6%
¿Ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos o familia por problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	87	50,9%	25	14,6%	43	25,1%	13	7,6%	3	1,8%
¿Ha faltado al colegio o no ha podido hacer los deberes por problemas en sus dientes o boca?	171	100,0%	125	73,1%	22	12,9%	24	14,0%	0	,0%	0	,0%
¿Ha sentido que su vida, en general, es menos satisfactoria debido a problemas con sus dientes o boca?	171	100,0%	106	62,0%	24	14,0%	30	17,5%	10	5,8%	1	,6%
¿En este último año, las molestias o el dolor en su boca y dientes le han impedido hacer vida normal?	171	100,0%	116	67,8%	26	15,2%	22	12,9%	7	4,1%	0	,0%

ÍTEMES CUESTIONARIO C-OHIP 14 (0-Nunca; 5-Siempre): padres niños fisurados

	N válido	Media	Desviación típica
En el último año, ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes?	171	1,45	1,46
En el último año, ¿ha notado peor el sabor o el gusto de las comidas por tener algún problema en la boca o dientes?	171	,53	,84
¿Le han dolido sus dientes o boca en el último años?	171	,84	1,08
¿Ha notado molestias para comer alguna comida por problemas en sus dientes o boca?	171	1,00	1,15
¿Ha estado preocupado debido a problemas con sus dientes o boca?	171	1,80	1,45
¿Le has sentido nervioso debido a problemas con sus dientes o boca?	171	1,49	1,40
¿Ha tenido problemas para comer bien lo que quería por problemas con sus dientes o boca?	171	,53	,79
¿Ha tenido que parar de comer alguna vez por problemas con sus dientes o boca?	171	,46	,77
¿Ha tenido algún problema para descansar o dormir bien debido a problemas con sus dientes o boca?	171	,47	,80
¿Ha sentido vergüenza de sus dientes en el último año?	171	1,36	1,38
¿Ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos o familia por problemas con sus dientes o boca?	171	,95	1,11
¿Ha faltado al colegio o no ha podido hacer los deberes por problemas en sus dientes o boca?	171	,41	,72
¿Ha sentido que tu vida, en general, es menos satisfactoria debido a problemas con sus dientes o boca?	171	,69	1,00
¿En este último año, las molestias o el dolor en su boca y dientes le han impedido hacer vida normal?	171	,53	,87

9. 1. 5. Cuestionario COHIP padres niños sanos

ÍTEM CUESTIONARIO C-OHIP 14: padres niños sanos

	Total		Nunca		Rara vez		A veces		A menudo		Muy a menudo	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
En el último año, ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes?	186	100,0%	167	89,8%	7	3,8%	12	6,5%	0	0,0%	0	0,0%
En el último año, ¿ha notado peor el sabor o el gusto de las comidas por tener algún problema en la boca o dientes?	186	100,0%	153	82,3%	11	5,9%	21	11,3%	1	0,5%	0	0,0%
¿Le han dolido sus dientes o boca en el último años?	186	100,0%	121	65,1%	9	4,8%	48	25,8%	6	3,2%	2	1,1%
¿Ha notado molestias para comer alguna comida por problemas en sus dientes o boca?	186	100,0%	127	68,3%	6	3,2%	41	22,0%	9	4,8%	3	1,6%
¿Ha estado preocupado debido a problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	121	65,1%	6	3,2%	46	24,7%	9	4,8%	4	2,2%
¿Le ha sentido nervioso debido a problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	128	68,8%	4	2,2%	46	24,7%	6	3,2%	2	1,1%
¿Ha tenido problemas para comer bien lo que quería por problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	159	85,5%	8	4,3%	19	10,2%	0	0,0%	0	0,0%

¿Ha tenido que parar de comer alguna vez por problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	157	84,4%	16	8,6%	13	7,0%	0	,0%	0	,0%
¿Ha tenido algún problema para descansar o dormir bien debido a problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	168	90,3%	11	5,9%	7	3,8%	0	,0%	0	,0%
¿Ha sentido vergüenza de sus dientes en el último año?	186	100,0%	141	75,8%	17	9,1%	26	14,0%	2	1,1%	0	,0%
¿Ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos o familia por problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	144	77,4%	6	3,2%	33	17,7%	3	1,6%	0	,0%
¿Ha faltado al colegio o no ha podido hacer los deberes por problemas en sus dientes o boca?	186	100,0%	160	86,0%	16	8,6%	10	5,4%	0	,0%	0	,0%
¿Ha sentido que su vida, en general, es menos satisfactoria debido a problemas con sus dientes o boca?	186	100,0%	153	82,3%	14	7,5%	18	9,7%	1	,5%	0	,0%
¿En este último año, las molestias o el dolor en su boca y dientes le han impedido hacer vida normal?	186	100,0%	157	84,4%	8	4,3%	19	10,2%	2	1,1%	0	,0%

ÍTEMES CUESTIONARIO C-OHIP 14 (0-Nunca; 5-Siempre): padres niños sanos

	N válido	Media	Desviación típica
En el último año, ¿ha tenido problemas para pronunciar alguna palabra debido a problemas con su boca o con sus dientes?	186	,17	,52
En el último año, ¿ha notado peor el sabor o el gusto de las comidas por tener algún problema en la boca o dientes?	186	,30	,69
¿Le han dolido sus dientes o boca en el último años?	186	,70	1,03
¿Ha notado molestias para comer alguna comida por problemas en sus dientes o boca?	186	,68	1,07
¿Ha estado preocupado debido a problemas con sus dientes o boca?	186	,76	1,11
¿Le has sentido nervioso debido a problemas con sus sientes o boca?	186	,66	1,02
¿Ha tenido problemas para comer bien lo que quería por problemas con sus dientes o boca?	186	,25	,63
¿Ha tenido que parar de comer alguna vez por problemas con sus dientes o boca?	186	,23	,56
¿Ha tenido algún problema para descansar o dormir bien debido a problemas con sus dientes o boca?	186	,13	,44
¿Ha sentido vergüenza de sus dientes en el último año?	186	,40	,77
¿Ha estado un poco irritable y antipático con sus amigos o familia por problemas con sus dientes o boca?	186	,44	,84
¿Ha faltado al colegio o no ha podido hacer los deberes por problemas en sus dientes o boca?	186	,19	,51
¿Ha sentido que su vida, en general, es menos satisfactoria debido a problemas con sus dientes o boca?	186	,28	,66
¿En este último año, las molestias o el dolor en su boca y dientes le han impedido hacer vida normal?	186	,28	,69

9. 1. 6. Cuestionario IOFS padres niños fisurados

ITEMS ESCALA IOFS: padres de niños fisurados

	Total		Totalmente de acuerdo		De acuerdo en la mayoría de aspectos		En desacuerdo en la mayoría de aspectos		Totalmente en desacuerdo	
	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla	Recuento	% del N de la tabla
Debido a la enfermedad de su hijo/a, su familia prescinde de ciertas cosas	171	100,0%	0	,0%	14	8,2%	61	35,7%	96	56,1%
Debido a la enfermedad de su hijo/a, sus vecinos o conocidos los tratan de forma no deseada	171	100,0%	0	,0%	1	,6%	65	38,0%	105	61,4%
Debido a la enfermedad de su hijo/a, ven con menos frecuencia a la familia y a los amigos	171	100,0%	0	,0%	3	1,8%	62	36,3%	106	62,0%
Después de cuidar a su hijo/a no le queda mucho tiempo para el resto de la familia	171	100,0%	0	,0%	11	6,4%	85	49,7%	75	43,9%
No tienen muchas ganas de salir a causa de la enfermedad de su hijo/a	171	100,0%	0	,0%	2	1,2%	76	44,4%	93	54,4%
No pueden viajar a causa de la enfermedad del niño/a	171	100,0%	0	,0%	2	1,2%	70	40,9%	99	57,9%
La enfermedad de su niño/a comporta cambios en los planes de la familia	171	100,0%	0	,0%	10	5,8%	71	41,5%	90	52,6%
Se pregunta si su hijo/a debe recibir un trato "especial" o normal, en relación con los otros niños/as de su edad	171	100,0%	7	4,1%	59	34,5%	81	47,4%	24	14,0%

Piensen no tener mas hijos a causa de la enfermedad	171	100,0%	0	,0%	5	2,9%	89	52,0%	77	45,0%
Nadie entiende la carga que significa para usted la enfermedad de su niñola	171	100,0%	8	4,7%	50	29,2%	70	40,9%	43	25,1%
Desplazarse hasta el hospital le resulta cansado	171	100,0%	0	,0%	8	4,7%	75	43,9%	88	51,5%
La vida familiar gira alrededor de la enfermedad de su hijol	171	100,0%	0	,0%	8	4,7%	84	49,1%	79	46,2%
Es difícil encontrar una persona de confianza para dejarla al cuidado de su hijola	171	100,0%	5	2,9%	36	21,1%	88	51,5%	42	24,6%
Viven día a día y no hacen planes para el futuro	171	100,0%	0	,0%	6	3,5%	82	48,0%	83	48,5%
El cansancio es un problema para usted debido a la enfermedad de su hijola	171	100,0%	0	,0%	9	5,3%	84	49,1%	78	45,6%
Aprender a manejar la enfermedad de su hijola le han hecho sentir mejor consigo misma	171	100,0%	9	5,3%	57	33,3%	64	37,4%	41	24,0%
Debido a lo que han compartido, en relación con la enfermedad, son una familia más unida	171	100,0%	5	2,9%	53	31,0%	68	39,8%	45	26,3%
Su marido y usted comentan los problemas de su hijo	171	100,0%	2	1,2%	40	23,4%	75	43,9%	54	31,6%
Intentan tratar a su hijola como si fuera un niño normal	171	100,0%	17	9,9%	73	42,7%	56	32,7%	25	14,6%
Sus parientes se muestran comprensivos y serviciales con su hijola	171	100,0%	1	,6%	34	19,9%	75	43,9%	61	35,7%
Necesitan ingresos adicionales para poder cubrir los gastos que ocasiona la enfermedad	171	100,0%	0	,0%	0	,0%	53	31,0%	118	69,0%

La enfermedad del niño/a ocasiona problemas económicos a la familia	171	100,0%	0	,0%	6	3,5%	65	38,0%	100	58,5%
Debido a la enfermedad del niño/a pierden tiempo de trabajo	171	100,0%	0	,0%	15	8,8%	64	37,4%	92	53,8%
Hahn reducido su horario laboral para poder cuidar de su hijo/a	171	100,0%	0	,0%	4	2,3%	55	32,2%	112	65,5%

ÍTEMES ESCALA IOFS (1-1 Totalmente de acuerdo- 4- Totalmente en desacuerdo): padres de niños fisurados

	N válido	Media	Desviación típica
Debido a la enfermedad de su hijo/a, su familia prescinde de ciertas cosas	171	3,48	,64
Debido a la enfermedad de su hijo/a, sus vecinos o conocidos los tratan de forma no deseada	171	3,61	,50
Debido a la enfermedad de su hijo/a, ven con menos frecuencia a la familia y a los amigos	171	3,80	,53
Después de cuidar a su hijo/a no le queda mucho tiempo para el resto de la familia	171	3,37	,60
No tienen muchas ganas de salir a causa de la enfermedad de su hijo/a	171	3,63	,52
No pueden viajar a causa de la enfermedad del niño/a	171	3,57	,52
La enfermedad de su niño/a comporta cambios en los planes de la familia	171	3,47	,61
Se pregunta si su hijo/a debe recibir un trato "especial" o normal, en relación con los otros niños/as de su edad	171	2,71	,76
Piensan no tener más hijos a causa de la enfermedad	171	3,42	,55
Nadie entiende la carga que significa para usted la enfermedad de su niño/a	171	2,87	,85

Desplazarse hasta el hospital le resulta cansado	171	3,47	,59
La vida familiar gira alrededor de la enfermedad de su hijo/a	171	3,42	,58
Es difícil encontrar una persona de confianza para dejarla al cuidado de su hijo/a	171	2,98	,76
Viven día a día y no hacen planes para el futuro	171	3,45	,57
El cansancio es un problema para usted debido a la enfermedad de su hijo/a	171	3,40	,59
Aprender a manejar la enfermedad de su hijo/a le han hecho sentir mejor consigo mismo/a	171	2,80	,87
Debido a lo que han compartido, en relación con la enfermedad, son una familia más unida	171	2,89	,83
Su marido y usted comentan los problemas de su hijo	171	3,06	,77
Intentan tratar a su hijo/a como si fuera un niño normal	171	2,52	,86
Sus parientes se muestran comprensivos y serviciales con su hijo/a	171	3,15	,75
Necesitan ingresos adicionales para poder cubrir los gastos que ocasiona la enfermedad	171	3,69	,46
La enfermedad del niño/a ocasiona problemas económicos a la familia	171	3,55	,57
Debido a la enfermedad del niño/a pierden tiempo de trabajo	171	3,45	,65
Ha/n reducido su horario laboral para poder cuidar de su hijo/a	171	3,63	,53