

Desarrollo de la entrevista ESNA: un instrumento para evaluar el sufrimiento en niños y adolescentes con enfermedades graves y necesidades paliativas

Daniel Toro-Pérez^{1*}, Ester Camprodon-Rosanas², Sergi Navarro Vilarrubí³, Ignasi Clemente⁴, Joaquín T Limonero⁵

Recibido: 7 de diciembre de 2022 / Aceptado: 10 de febrero de 2023

Resumen. Introducción: Hay una carencia de instrumentos específicos para evaluar el sufrimiento de niños y adolescentes con necesidades paliativas. Objetivo: Describir el proceso de diseño y creación del instrumento para la Evaluación del Sufrimiento en Niños y Adolescentes (ESNA) con necesidades paliativas. Método: 1) Revisión sistemática de la literatura; 2) Establecer marco teórico; 3) Definir los criterios del instrumento; 4) Establecer temáticas relacionadas con el sufrimiento; 5) Validación de contenido por expertos; 6) Validez de facie por pacientes; y 7) Prueba piloto. Resultados: 1) De 750 artículos, se evalúan 161 y se incluyen 51; 2) el marco teórico incorpora el Modelo integrativo del Sufrimiento de Kriokorian, y el Modelo Ecológico de Afrontamiento del Estrés de Brofenbrenner; 3) los criterios priorizan brevedad, lenguaje claro y preguntas relevantes; 4) temáticas relevantes establecidas con 18 adolescentes: vivencia de la enfermedad, gestión de la información, impacto emocional, relación con los otros y el impacto en los otros; 5) 14 profesionales realizan juicio de expertos de la versión preliminar; 6) 8 pacientes realizaron valoración aparente de contenido; y 7) Prueba piloto y análisis cualitativo con 8 pacientes. El instrumento ESNA final es heteroadministrado, con 42 preguntas (26 son exploratorias y 16 ítems cuantitativos). Explora: Experiencia de Enfermedad;

- 1 Daniel Toro-Pérez. School of Psychology. Stress and Health Research Group, Autonomous University of Barcelona, Barcelona, Spain. Children and Adolescent Mental Health Department. Palliative Care and Complex Chronic Patient Service (C2P2). Sant Joan de Deu Hospital of Barcelona, Barcelona, Spain. <https://orcid.org/0000-0001-7372-9976>
E-mail: (Daniel.Toro@autonoma.cat)
 - 2 Ester Camprodon-Rosanas. Children and Adolescent Mental Health Research Group. Institut de Recerca Sant Joan de Déu. Child and Adolescent Mental Health Area, Psychiatry and Psychology, Hospital Sant Joan de Déu Barcelona, Esplugues de Llobregat, Spain. <https://orcid.org/0000-0003-0170-1717>.
E-mail: ester.camprodon@sjd.es
 - 3 Sergi Navarro Vilarrubí. Graduate in medicine and surgery. Paediatric specialist. Official Master's Degree in Attention and Palliative Care. Palliative Care and Complex Chronic Patient Service (C2P2). Sant Joan de Déu Hospital in Barcelona. <https://orcid.org/0000-0002-1009-8991>.
E-mail: ester.camprodon@sjd.es
 - 4 Ignasi Clemente. Department of Anthropology. Hunter College, City University of New York. <https://orcid.org/0000-0002-8156-577X>.
E-mail: iclement@hunter.cuny.edu
 - 5 Joaquín T Limonero. School of Psychology. Stress and Health Research Group, Universitat Autònoma de Barcelona, Barcelona, Spain. <https://orcid.org/0000-0003-0573-791X>.
E-mail: joaquin.limonero@uab.cat
- * Dirección de correspondencia: Daniel Toro-Pérez. Hospital Sant Joan de Déu, Barcelona. C/ Joan Maragall, 23, 7^o3^o. Cornellà. CP 08940. E-mail: Daniel.Toro@autonoma.cat

Gestión de la Información; Esperanza y expectativas; Regulación Emocional; Impacto en los otros; y Aspectos relacionales. Conclusiones: El instrumento ESNA parece ser una herramienta apropiada para la identificación del sufrimiento en niños y adolescentes con necesidades paliativas estando pendiente la evaluación de sus propiedades psicométricas.

Palabras clave: Sufrimiento, evaluación, niños, cuidados paliativos pediátricos, adolescentes.

[en] Development of the ESNA interview: An instrument to assess suffering in children and adolescents with serious illnesses and palliative needs.

Abstract. Introduction: There is a lack of specific instruments to assess the suffering of children and adolescents with palliative needs. Objective: Describe the process of designing and creating the instrument for the Assessment of Suffering in Children and Adolescents (ESNA) with palliative needs. Method: 1) Literature review; 2) Establish theoretical framework; 3) Define the criteria of the instrument; 4) Establish themes related to suffering; 5) Validation of content by experts; 6) Validity of facie by patients; and 7) Pilot test. Results: 1) Of 750 articles, 161 are evaluated and 51 are included; 2) the theoretical framework incorporates the Kriokorian Integrative Model of Suffering, and the Brofenbrenner Ecological Model of Coping with Stress; 3) the criteria prioritize brevity, clear language and relevant questions; 4) relevant themes established with 18 adolescents: experience of the disease, information management, emotional impact, relationship with others and the impact on others; 5) 14 professionals carry out expert judgment of the preliminary version; 6) 8 patients made an apparent assessment of content; and 7) Pilot test and qualitative analysis with 8 patients. The final ESNA instrument is hetero-administered, with 42 questions (26 are exploratory and 16 quantitative items). Explore: Experience of Illness; Information management; Hope and expectations; Emotional Regulation; Impact on others; and relational aspects. Conclusions: The ESNA instrument seems to be an appropriate tool for the identification of suffering in children and adolescents with palliative needs, pending the evaluation of its psychometric properties.

Keywords: Suffering, pediatric palliative care, children, adolescents, assessment.

Sumario: 1. Introducción 2. Método 3. Resultados 4. Discusión 5. Conclusión. 6. Agradecimientos 7. Referencias bibliográficas

Cómo citar: Toro-Pérez D, Camprodon-Rosanas E, Navarro Vilarrubí S, Clemente I, Limonero JT. Desarrollo de la entrevista ESNA: un instrumento para evaluar el sufrimiento en niños y adolescentes con enfermedades graves y necesidades paliativas. *Psicooncología* 2023; 20: 45-62. <https://dx.doi.org/10.5209/psic.85118>

1. Introducción

La atención paliativa pediátrica tiene como objetivo optimizar la calidad de vida, desde la etapa prenatal hasta la adolescencia de los niños que presentan una enfermedad grave, habitualmente incurable, que amenaza o acorta su vida. Ofrece atención integral al paciente y a su familia en las diferentes dimensiones: física, psicológica, social y espiritual⁽¹⁾.

Se estima que casi 4 millones de niños necesitarán cuidados paliativos. Los niños y adolescentes de 0 a 19 años comprenden el 7% de las necesidades globales totales de cuidados paliativos mundiales. La condición de enfermedad que genera la mayor necesidad de cuidados paliativos entre los niños es el VIH/SIDA, el parto prematuro y el trauma del parto, las anomalías congénitas, las lesiones, las neoplasias malignas y otras enfermedades raras⁽²⁾. A nivel europeo, los estudios publicados sobre la prevalencia de niños con necesidades paliativas oscilan entre un mínimo de 10 de

cada 10000 niños y adolescentes⁽³⁾; y de 20 por cada 10.000 niños en países como Reino Unido⁽²⁾. En España, cada año mueren alrededor de 3.000 niños. Aunque la mortalidad en la infancia ha descendido, la prevalencia de enfermedades incurables y la discapacidad ha aumentado. Se estima que en la población española <20 años (9.290.273 personas) en un año, entre 900 y 1500 niños morirán por enfermedades que limitan la vida (40% de cáncer y 60% de otras enfermedades); de 11000 a 15000 padecerán una enfermedad limitante para la vida y entre 5500 y 7500 de ellos necesitarán que les den respuesta a las necesidades específicas de la edad pediátrica, al final de la vida.

El tratamiento de este tipo de pacientes es complejo y se extiende durante un largo período de tiempo⁽⁴⁾. Sus necesidades fluctúan según el estado de salud y progresión de la enfermedad, así como de la composición familiar, los recursos y sus dimensiones espirituales / culturales⁽⁵⁾. Presentan con mayor frecuencia síntomas de depresión y ansiedad, nerviosismo e irritabilidad⁽⁶⁾. Estos síntomas son difícilmente separables por los niños de los propios síntomas físicos. A menudo están interrelacionados, y abordar cada uno de ellos suele ser importante para el alivio de los demás⁽⁷⁾. La sintomatología varía en severidad de “sentirse triste y ansioso”, una respuesta adaptativa normal, a aquellos que cumplen los criterios diagnósticos para un trastorno psiquiátrico (por ejemplo, trastorno depresivo mayor, que causa angustia significativa o interfiere con la función cotidiana)⁽⁸⁾. Se trata de una situación dinámica y cambiante en función de la evolución de la enfermedad.

La guía NICE⁽⁹⁾ sobre Cuidados Paliativos Pediátricos recomienda evaluar de manera regular el bienestar psicológico y emocional de los niños, particularmente en los momentos de cambio o de mayor vulnerabilidad. En 2021, un grupo internacional de expertos en Pediatric Palliative Care (PPC) emprendió la tarea de revisar los estándares IMPaCCT⁽¹⁰⁾ a través del proyecto GO-PpaCS (Global Overview – PPC Standards)⁽¹¹⁾. En la tabla 1 se muestran sus conclusiones sobre el impacto psicológico.

Tabla 1. Estándares GO-PPaCS – PPC Standards(11)

Se debe ayudar a los niños con enfermedades graves o que enfrentan el proceso de morir a lidiar con una variedad de sentimientos, pensamientos y comportamientos que reflejan su ansiedad y angustia.

Se deben evaluar las preocupaciones y necesidades psicológicas cuando sea posible, por especialistas capacitados dentro del equipo multidisciplinario o, si no están disponibles, por personas capacitadas en atención psicológica.

Las herramientas psicosociales adecuadas deberían ayudar a identificar las dificultades de los niños y planificar las intervenciones apropiadas (terapia verbal, simbólica, de juego o artística).

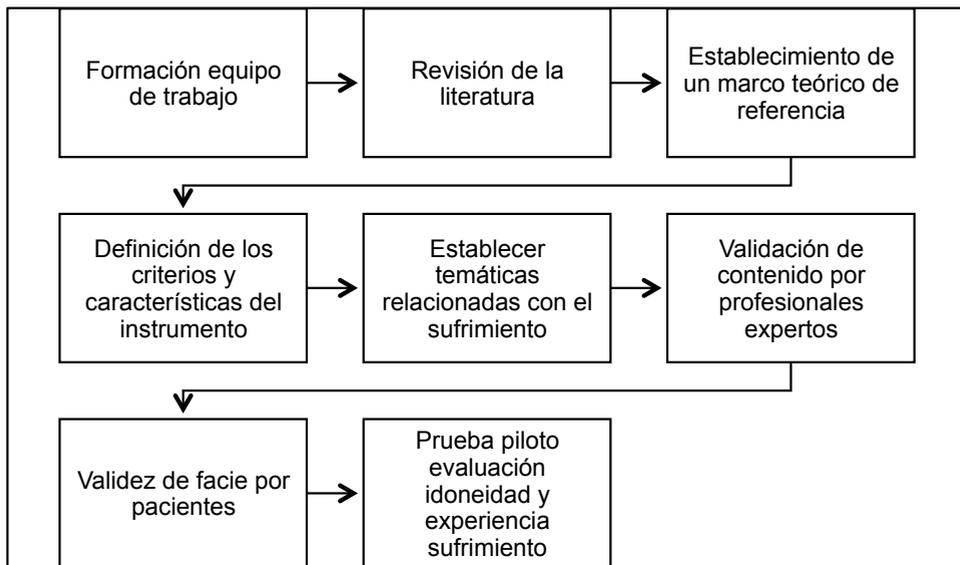
En resumen, la evaluación del sufrimiento y su correspondiente intervención psicológica cuando hay enfermedad crónica compleja y necesidades paliativas en el niño es claramente necesaria e insuficiente. El objetivo de este estudio es describir el proceso sistemático de diseño y creación del instrumento para la Evaluación del Sufrimiento en Niños y Adolescentes (ESNA) con enfermedades crónicas complejas y necesidades paliativas con el fin de desarrollar una herramienta que permita obtener un instrumento para la evaluación psicológica del sufrimiento de niños y

adolescentes con enfermedades graves y necesidades paliativas que presente buenas propiedades psicométricas y que sea útil desde el punto de vista clínico.

2. Método

A continuación, se describe los pasos realizados para el desarrollo de la escala ESNA, que se detallan en la Figura 1.

Figura 1. Proceso de investigación para la construcción escala ESNA



- I. *Formación de un equipo de trabajo*: cuatro profesionales expertos en cuidados paliativos y/o psicología infantil (un psicólogo experto en cuidados paliativos, una psicóloga experta en psicología infantil y juvenil, un pediatra y un psicólogo expertos en cuidados paliativos pediátricos) formaron un grupo de trabajo para el estudio del sufrimiento en niños y adolescentes con necesidades paliativas y elaborar la escala ESNA.
- II. *Revisión de la literatura*. Se realizó el “Estudio 1: Revisión Sistemática” donde se analizó la bibliografía relevante sobre el tema utilizando las bases de datos Pubmed, Psycinfo y web of science desde 1980 hasta Julio 2020 siguiendo las recomendaciones de la guía PRISMA (Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses)⁽¹²⁾.
- III. *Establecimiento de un marco teórico de referencia*. Se realizó búsqueda bibliográfica de diferentes modelos teóricos que permitan describir de forma clara tanto la génesis del sufrimiento como los factores potenciales del mismo como resultado del afrontamiento que realiza el propio niño y la unidad familiar de la situación de enfermedad avanzada, final de vida y la inminencia de la muerte.

- IV. *Definición de los criterios o características del instrumento.* Seguimos las recomendaciones de Limonero y Gil⁽¹³⁾ respecto a los criterios que debe cumplir una herramienta para la evaluación psicológica en pacientes con enfermedad avanzada: (1) simplicidad y facilidad de implementación; (2) lenguaje de las preguntas adaptadas a los pacientes; (3) evitar la iatrogenia con un número excesivo de ítems; (4) evaluar aspectos relevantes para el paciente en su situación; (5) tiempo de implementación corto; (6) que permita monitorear la evolución de la condición emocional del paciente a lo largo del tiempo; y (7) facilitar su derivación, si es necesario, a un profesional cualificado para una evaluación e intervención específicas.
- V. *Establecer temáticas relacionadas con el sufrimiento.* A partir de la revisión bibliográfica y del análisis de las experiencias de sufrimiento, de 18 adolescentes (de los cuales 5 fueron entrevistas semiestructuradas a pacientes del servicio de Atención Paliativa y Paciente Crónico Complejo (C2P2) del Hospital Sant Joan de Déu de Barcelona, y un grupo focal con 13 adolescentes que habían tenido alguna enfermedad crónica y habían sido tratados en el mismo centro) se exploró su experiencia de sufrimiento. La media de edad de los participantes fue de 16,47 ($DT= 2,97$), con un rango que osciló entre los 10 y 21 años. El estudio completo de Diseño y Validación del instrumento ESNA obtuvo la aprobación por el Comité de Ética de Investigación Clínica del Hospital Sant Joan de Déu en fecha 25/06/2020 con código PIC-158-20.
- VI. *Validación de contenido por profesionales expertos.* Se sometió el diseño preliminar de la escala a un grupo de profesionales expertos en Cuidados Paliativos que valoraron la idoneidad de las preguntas y si éstas deberían ser modificadas o reformuladas. Participaron 14 expertos mediante formulario Google® donde evaluaban la relevancia de cada ítem y la posible eliminación o reformulación del mismo. En la tabla 2 se muestran las preguntas realizadas.

Tabla 2. Preguntas por ítem para la validación de contenido por expertos y pacientes

Aspecto a evaluar	Pregunta	Respuesta
Comprensión	¿Comprende bien esta pregunta, es clara?	Muy Clara Bastante clara Regular Poco Clara Nada Clara
Relevancia	¿Considera importante que hagamos esta pregunta?	Sí / No
Supresión	¿Eliminaría esta pregunta?	Sí / No
Modificación	¿Modificaría esta pregunta?	Sí / No

- VII. *Validez de facie por pacientes.* Para analizar la idoneidad de las preguntas de la entrevista ESNA, es decir, su validez aparente, se preguntó a 8 pacientes en seguimiento por el Servicio C2P2 (5 chicos y 3 chicas) de edades

comprendidas entre los 8 y 22 años (edad media de 15 años). La evaluación consistió en preguntas sobre la comprensión de los ítems, la relevancia de los mismos, si faltaba algún aspecto relevante que no se hubiera preguntado, y si consideraba inadecuada las preguntas o le habían ocasionado malestar. En la tabla 2 se muestran las preguntas realizadas para evaluar cada uno de los ítems.

VIII. *Prueba piloto para el estudio de las variables psicométricas.* Se realizó un estudio piloto con 8 pacientes en seguimiento por el Servicio C2P2 (diferentes a los que participaron en la validez de face) administrando la escala ESNA con el objetivo de evaluar la idoneidad de la escala y explorar cualitativamente la experiencia de sufrimiento de estos niños. Los participantes tenían una edad media de 11,75 años ($DT = 3,58$), el 50% eran niñas, y el 50% presentaban enfermedad avanzada. Se realizó un análisis cualitativo con perspectiva fenomenológica de las temáticas emergentes en relación a las fuentes de sufrimiento.

3. Resultados

La entrevista ESNA se elaboró teniendo en cuenta la revisión bibliográfica, la discusión de diferentes modelos teóricos, el consenso de los miembros del grupo de trabajo y la valoración de expertos y de pacientes.

Respecto a la revisión sistemática se identifican 750 artículos, de los que cumplen los criterios de inclusión y se evalúan 161 y se incluyen 51, encontrando 109 instrumentos que exploran el sufrimiento en niños y adolescentes, destacando los siguientes aspectos evaluados: la relación padres-niño, el impacto familiar, la toma de decisiones, aspectos psiquiátricos (depresión, ansiedad, riesgo suicidio), impacto de los síntomas, estilos de afrontamiento, adherencia al tratamiento, estado cognitivo, impacto emocional, estado físico, alteraciones del sueño, irritabilidad, relación con iguales, aspectos espirituales y la resiliencia.

En relación a la elección del marco teórico, en la elaboración de la entrevista ESNA se partió del Modelo integrativo del sufrimiento de Krikorian y Limonero⁽¹⁴⁾ y del Modelo Ecológico de Afrontamiento del Estrés de Bronfenbrenner^(15,16). El primero tiene su origen en modelos precedentes, como el de Amenazas-Recursos de Bayés et al.⁽¹⁷⁾ y el Modelo Transaccional del Estrés de Lazarus y Folkman⁽¹⁸⁾, entre otros. El modelo sostiene que el sufrimiento es una experiencia multidimensional y dinámica de estrés severo que ocurre cuando hay una amenaza significativa para la persona y los procesos regulatorios son insuficientes, llevando al agotamiento. Por lo tanto, el sufrimiento implica aspectos psicológicos (cognitivos, emocionales, espirituales) y fisiológicos cuando la persona trata de adaptarse o recuperar un estado dinámico de equilibrio y bienestar. Puede ser exacerbado por las emociones desagradables, o disminuido por las emociones agradables, que ayudan al paciente a sentirse restaurado y sostenido durante los esfuerzos de afrontamiento. El modelo ecológico de afrontamiento del estrés de Bronfenbrenner refleja el contexto como un conjunto de sistemas (familia-escuela-recursos sanitarios-políticas gubernamentales) y que la interrelación entre ellos será clave para el tipo de afrontamiento familiar. Resalta la función reguladora y de acompañamiento que tienen los padres y profesionales sanitarios en los procesos de enfermedad de los niños⁽¹⁹⁾. El curso clínico de un niño

con enfermedad en situación de final de vida puede comprender periodos de estrés crónico, así como episodios de crisis aguda, que juntos son una fuente de tensión impredecible tanto para las familias, y los profesionales sanitarios, y también para el niño ante las reacciones de estos⁽²⁰⁾. Es por ello por lo que debemos tener presente la unidad familiar, donde los padres y los niños tienen una relación bidireccional en la experiencia de sufrimiento.

Con el análisis de la experiencia de sufrimiento de 18 adolescentes, se obtuvieron resultados similares a los obtenidos por Limonero y Gil⁽¹³⁾ en relación a las características que debería tener una herramienta para la evaluación del sufrimiento: 1) Lenguaje adaptado al nivel de desarrollo; 2) Preguntas relevantes; 3) Que sea heteroadministrado por un profesional de confianza; 4) Que alterne preguntas abiertas con preguntas cerradas, para favorecer la expresión del niño o adolescente; y 5) Que se utilice un formato facilitador que pueda incluir las tecnologías de la información. También aportan la idea que, aunque ellos tienen que ser la fuente de información principal, es necesario tener en cuenta lo que opinan las personas que más los conocen, que son sus padres, madres y/o cuidadores principales, así como la visión de los profesionales sanitarios referentes, que también los han observado en situaciones críticas en las que ellos mismo pierden el control. A partir del estudio de las experiencias de sufrimiento se delimitaron las temáticas relevantes que los adolescentes relacionaron con las fuentes de sufrimiento durante la experiencia de enfermedad grave. Se establecieron 6 temáticas principales que se muestran en la figura 2.

Figura 2. Fuentes de Sufrimiento estudio ESNA



De todo este trabajo surgió la primera versión del cuestionario ESNA heteroadministrado con 21 ítems de orientación cuantitativa (escala Likert y escala visual analógica) con 21 preguntas exploratorias posterior para profundizar en la respuesta.

Para analizar la validez de contenido” 14 expertos en Cuidados Paliativos y/o Psicología Pediátrica valoraron la primera versión del cuestionario. Se muestran los resultados en la tabla 3. El índice de acuerdo entre jueces es positivo e igual a 0,57 (intervalo 0,50-0,62), indicando una concordancia significativa ($p < 0,0001$) entre los expertos.

	Profesionales (N=14)	Pacientes (N=8)
Grado comprensión (escala 0 a 4)	3,46 (DT=0,22)	3,73 (DT=1,59)
% grado acuerdo relevancia ítems	97,62	96,88
% propuesta modificación ítems	29,42	31,88
% propuesta eliminación ítems	1,72	1,25
Especificidad evaluación sufrimiento	100%	8,56 (DT=1,59) sobre 10
Malestar emocional asociado	---	0,75 (DT=1,17) sobre 10
Observaciones	Formato entrevista	Omitir “Enfermedad”, “Esperanza”

En las observaciones generales los expertos propusieron cambiar la orientación de las preguntas a entrevista exploratoria con ítems cuantitativos asociados. Se obtuvo la segunda versión del ESNA, en formato de entrevista heteroadministrada, con 23 preguntas de orientación exploratoria con 21 ítems cuantitativos asociados.

Para analizar la Validez de *facie* o aparente” de contenido 8 pacientes del servicio C2P2 analizaron la idoneidad de la escala y se obtuvieron los resultados que se muestran en la tabla 3. Para decidir si se mantenían, se eliminaban o se reformulaban las preguntas que formaban parte de la entrevista, se tomó como criterio que el grado de comprensión y de adecuación realizado por los niños. Valores inferiores indicarían la necesidad de reformulación o eliminación de estos ítems. Se obtuvo la tercera versión del ESNA, donde se eliminó 1 ítem quedando en 22 preguntas de orientación exploratoria con 21 ítems cuantitativos asociados.

Finalmente, con el análisis cualitativo de la prueba piloto que se realizó administrando la entrevista ESNA a 8 pacientes del Servicio C2P2, se obtuvieron 6 áreas temáticas emergentes en relación a las fuentes de sufrimiento: 1) vida socio-emocional en familia; 2) gestión relacional de la comunicación, la información y las emociones; 3) reflexiones sobre el continuo vida-muerte; 4) disrupciones vitales, sociales e identitarias; 5) centralidad de los padres; y 6) no centralidad de la enfermedad. El tiempo medio que necesitaron para responder la entrevista fue de 29,50 minutos (DT=6,80). Se observó dificultades de comprensión en 2 pacientes de 8 años, por lo que se decidió aumentar la edad de administración a 9 años. Tras estos datos, se modificaron 11 ítems del instrumento ESNA, siendo el resultado final una entrevista con un total de 42 preguntas que describimos a continuación.

Descripción de la escala ESNA

El instrumento elaborado para evaluar el sufrimiento en niños y adolescentes con enfermedades graves y necesidades paliativas (ESNA) es heteroadministrado en forma de entrevista con 42 preguntas, de las cuáles 26 son preguntas exploratorias (22 preguntas abiertas y 4 ítems categóricos) y 16 ítems cuantitativos con diferentes

formatos de respuesta (15 ítems de formato tipo Escala Visual Analógica de 10 puntos para cuantificar la respuesta; y 1 en formato categórico con 4 opciones de respuestas) en una plataforma digital (Aimentia Health®). Las diferentes preguntas exploratorias nos ayudarán a comprender la causa del sufrimiento y la observación realizada por el psicólogo referente valida la puntuación obtenida por el cuestionario y también nos ayuda a comprender mejor su comportamiento y los elementos que están implicados en su sufrimiento. En la tabla 4 se muestran los ítems de la versión final de la escala ESNA.

Tabla 4. Ítems Entrevista Evaluación del Sufrimiento en Niños y Adolescentes (ESNA v1)

Ítem	Contenido	Formato
1	Los médicos y las enfermeras me han explicado parte de lo que te ha pasado con la enfermedad, pero ¿me puedes decir tú cómo lo has vivido desde el inicio hasta ahora? ¿Qué te han ido explicando y cómo te has sentido?	Abierta
2	¿Cómo lo estás llevando estas 2 últimas semanas?	Abierta
3	¿Podrías situarlo en esta línea entre llevarlo muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
4	¿Cómo te encuentras físicamente?	Abierta
5	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
6	Hasta ahora, ¿cómo crees que te están explicando lo que te pasa? ¿Quién te lo ha explicado?	Abierta
7	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
8	¿Te gustaría saber más sobre tu situación?	Sí / No / No lo sé
9	¿El qué?	Abierta
10	¿Has explicado tú a alguien lo que te pasa?	Sí / No / No lo sé
11	¿A quién? ¿Por qué?	Abierta
12	¿Podrías situar en esta línea cómo te hace sentir hablar de lo que te pasa entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
13	¿Cómo crees que te va a ir tu enfermedad más adelante?	Abierta
14	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
15	¿Cómo se te pasó (hizo) el día de ayer?	Corto/Largo/Normal
16	¿Por qué?	Abierta
17	En los últimos días, ¿qué es lo que más te preocupa?	Abierta
18	¿Podrías decir cuánto te preocupa entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10

Ítem	Contenido	Formato
19	¿Hay algo más que te preocupe?	Abierta
20	¿Cómo te has sentido al estar con tu familia con la que vives?	Abierta
21	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
22	¿Cómo te has sentido al estar/hablar con tu/tus mejor/es amigos/as?	Abierta
23	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
24	¿Cómo crees que tu familia con la que vives (padre/madre/hermanos) está llevando esta situación?	Abierta
25	¿Podrías situarlo en esta línea entre muy mal y muy bien?	EVA 0 a 10
26	¿Por qué piensas que se encuentran así?	Abierta
27	¿Podrías situar cuánta ALEGRÍA has tenido entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
28	¿Qué es lo que te ha hecho sentir ALEGRÍA estas 2 semanas?	Abierta
29	¿Podrías situar cuánta RABIA has tenido entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
30	¿Qué es lo que te ha hecho sentir RABIA estas 2 semanas?	Abierta
31	¿Podrías situar cuánto MIEDO has tenido entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
32	¿Qué es lo que te ha hecho sentir MIEDO estas 2 semanas?	Abierta
33	¿Podrías situar cuánta TRISTEZA has tenido entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
34	¿Qué es lo que te ha hecho sentir TRISTEZA estas 2 semanas?	Abierta
35	¿Qué es lo que más te ayuda a estar bien o mejor?	Abierta
36	¿Podrías situarlo en esta línea entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
37	¿Qué podemos nosotros hacer para que tú estés mejor?	Abierta
38	¿Te gustaría que cambiase tu vida actual?	Abierta
39	¿Podrías situarlo en esta línea entre nada y muchísimo?	EVA 0 a 10
40	Si tuvieras una varita mágica, ¿qué 3 deseos le pedirías?	Abierta
41	Y con 1 deseo, ¿qué te gustaría que no cambiase en tu vida?	Abierta
42	¿Hay alguna cosa importante para ti que quieras comentar y que no hemos hablado?	Abierta

Los diferentes ítems pretenden evaluar las diferentes áreas: I. Experiencia de Enfermedad; II. Gestión de la Información; III. Esperanza y expectativas; IV. Regulación Emocional; V. Impacto en los otros; y VI. Aspectos relacionales. El sistema de puntuaciones y posibles baremos están previsto de definir en el Estudio de Validez de Constructo analizando sus propiedades psicométricas. En la elaboración de las preguntas de la entrevista ESNA se ha elegido un lenguaje claro y fácilmente comprensible en su formulación. Se ha tenido muy presente la elaboración de preguntas que las mismas no generasen o añadiesen más sufrimiento al enfermo ni que las mismas influyeran en su respuesta. La escala ESNA otorga una puntuación total máxima de 160 puntos, con un rango que oscila de 0 a 160 formada por la suma de las puntuaciones de las respuestas a los ítems de las diferentes dimensiones. De los 16 ítems puntuables, 5 presentan puntuación invertida para intentar controlar el sesgo de respuestas. En la actualidad los baremos de la escala están pendientes de definir según el estudio de las propiedades psicométricas. Las preguntas abiertas permiten a los profesionales sanitarios conocer mejor las causas posibles del sufrimiento para llevar a cabo una atención más específica.

Otros informantes a tener en cuenta

Tanto en los resultados de la Revisión Sistemática como del estudio de la Experiencia de Sufrimiento, y teniendo como referencia los marcos teóricos ya mencionados, se consideró necesaria la aportación de otros informantes que sean personas significativas del niño. No solo en sentido de su evaluación del sufrimiento del niño, sino porque la propia experiencia de sufrimiento de estas personas significativas (padres, madres, profesionales sanitarios) puede tener influencia directa en el sufrimiento del niño. De hecho, el sufrimiento del paciente incide en el sufrimiento del familiar y viceversa, denominándose a esta interacción sufrimiento recíproco⁽²¹⁾. Es por ello por lo que el equipo investigador sugiere que, en el próximo estudio de validación psicométrica de la entrevista ESNA, se incluyan y analicen variables en torno a la evaluación que hacen los padres, madres y profesionales sanitarios sobre el sufrimiento del niño. También se recomienda incluir variables de los padres y madres (o cuidadores principales) sobre su propio malestar y sufrimiento (síntomatología ansioso-depresiva, regulación emocional, sobrecarga familiar, malestar emocional y resiliencia). Con todas estas variables se realizará un análisis para evaluar la correlación y aportación de estas y poder incluirlas con un peso específico en la entrevista ESNA final.

4. Discusión

El elemento clave para comprender la experiencia de sufrimiento de los niños y adolescentes con enfermedades crónicas complejas y/o necesidades paliativas, no es la presencia de determinados síntomas de naturaleza biomédica, social, psicológica o espiritual^(22,23), sino el significado que el niño les atribuye en base al grado de amenaza y malestar que cada uno de ellos le genera^(18,24). Conocer las fuentes de sufrimiento y fortaleza de cada individuo es necesario para poder focalizar la atención paliativa individualizada.

Para poder aliviar el sufrimiento que padecen los enfermos al final de la vida, evitando que se desborden sus recursos y se desencadenen síntomas refractarios,

es necesario detectar precozmente ese malestar y, para ello, se tiene que disponer de instrumentos de validez y fiabilidad contrastadas. Incluir la perspectiva del niño es un componente esencial para comprender la experiencia de los síntomas y mejorar la atención durante la enfermedad avanzada⁽²⁵⁻²⁸⁾ aunque en la mayoría de estudios o en la práctica cotidiana a menudo no se contempla. Por otro lado, a pesar de las dificultades que en muchas ocasiones comporta la evaluación, dada la extrema fragilidad de los enfermos, la experiencia de evaluación en si misma genera en la mayoría de los casos el establecimiento de una relación terapéutica con el paciente que estimula la creación de un vínculo con capacidad para proveer un soporte relacional⁽²⁹⁾ tal y como se ha observado en otras escalas que han evaluado el malestar emocional de personas con enfermedad avanzada o al final de vida^(23,30,31).

Factores como el soporte social y familiar, la esperanza, encontrar un sentido en la vida y poder despedirse, contribuyen a la experiencia de sufrimiento⁽³²⁾ favoreciendo el bienestar emocional. Algunos de los elementos que la literatura identifica en relación sobre la experiencia psicológica de niños y adolescentes frente a situaciones de riesgo vital son los cambios en las relaciones, los pensamientos sobre la muerte, los cambios emocionales, los síntomas físicos que son fuente de sufrimiento, los cambios a nivel espiritual y los sentimientos de incertidumbre⁽³³⁾. En la entrevista ESNA se evalúan 6 aspectos: I. Experiencia de Enfermedad; II. Gestión de la Información; III. Esperanza y expectativas; IV. Regulación Emocional; V. Impacto en los otros; y VI. Aspectos relacionales.

Respecto a la *Experiencia de Enfermedad* se incluye el impacto de los síntomas físicos y la ruptura con la “normalidad”. Este tema es ampliamente evaluado en la literatura. En el estudio de Wolfe et al.⁽³⁴⁾, en el que se evaluaban los síntomas en las doce últimas semanas de vida de los niños y adolescentes, los síntomas fueron reportados con alto malestar emocional, siendo los síntomas físicos particularmente frecuentes al final de la vida. Los síntomas más frecuentes fueron dolor (61,6%), somnolencia (50%) y fatiga (49,3%), estando también presente las náuseas, anorexia, diarrea, vómitos, sequedad de boca e irritabilidad. La literatura predominantemente evidencia que la vivencia de la enfermedad grave de niños y adolescentes está relacionada con reacciones psicológicas adaptativas y no con trastornos clínicos o psicopatológicos con entidad propia ya que gradualmente se van familiarizando con la situación y disminuyen los síntomas y sus reacciones desadaptativas⁽²⁵⁾. Aun así, es cierto que los niños con enfermedades potencialmente mortales comúnmente experimentan sintomatología ansioso-depresiva, especialmente en población adolescentes⁽²⁶⁾, nerviosismo o irritabilidad⁽²⁷⁾ y los trastornos de salud mental más prevalentes son los trastornos adaptativos y alteraciones del comportamiento, estrés postraumático, depresión y ansiedad^(8,25). Los intentos de un niño enfermo de ser similar a otros niños, y de comportarse y responder como ve que hacen otros niños pueden ser un poco irreales, pero es una forma de sobrellevar su enfermedad crónica. La negación, la represión y la esperanza pueden ser utilizadas adaptativamente por los niños con enfermedades crónicas y sus familias para mantener un compromiso entre el ideal del yo y el autoconcepto realista⁽²⁸⁾. El mantenimiento de la normalidad puede reducir la sensación de impotencia y desesperación⁽³⁵⁾.

Respecto a la *Gestión de la Información*, son conocidos los efectos positivos de la información a los niños sobre su diagnóstico y pronóstico reduciendo la intensidad de los síntomas de ansiedad y depresión y mejorando la adherencia al tratamiento⁽³⁶⁾. El silencio que rodea a los miedos no tratados se asocia, generalmente, con la

ansiedad del paciente pediátrico⁽²⁶⁾. La capacidad de comprender la experiencia de los síntomas mejora cuando los profesionales integran la perspectiva del niño mediante los resultados informados por el propio paciente⁽³⁷⁾. En algunos estudios, los niños solicitaban información veraz, incluso si el pronóstico es malo, y no deseaban que les dieran falsas expectativas, que les hicieran sentir que se les habían mentado y que, a su vez, pudieran perjudicar la relación terapéutica⁽³⁸⁾. Bajo la experiencia clínica del grupo investigador, los niños y adolescentes tienen y quieren información sobre su enfermedad y pronóstico, y es necesario conocer estas necesidades para dar la mejor atención posible. Pero también se sabe que esto no es universal, con estimaciones del 25% de los adolescentes que no quieren esta información⁽³⁶⁾. No podemos pasar por alto que los niños pueden reprimir preocupaciones emocionales difíciles, al igual que los pacientes adultos con cáncer los niños pueden ocultar los síntomas para evitar sobrecargar a los miembros de la familia⁽³⁹⁾ y tener una mayor deseabilidad social que disminuye la sinceridad en sus respuestas.

La temática sobre *Esperanza y Expectativas* es la menos estudiada de todas las propuestas. De acuerdo con las pautas desarrolladas por la Sociedad Internacional de Oncología Pediátrica (SIOP), los niños “deben saber tanto como sea posible y apropiado para su desarrollo sobre la gravedad de su situación” y cualquier información que se brinde debe permitir que el niño retenga un margen de esperanza⁽⁴⁰⁾. Comunicar un mal pronóstico de manera veraz y al mismo tiempo permitir la esperanza sigue siendo uno de los desafíos diarios para los profesionales de la salud que trabajan en cuidados paliativos pediátricos. Sin embargo, la esperanza puede enfocarse en muchas cosas diferentes y la esperanza de curación puede ser reemplazada por otras metas⁽³⁸⁾.

Los aspectos relacionados con la *Regulación Emocional* son básicos en la percepción de sufrimiento. Como hemos mencionado, la vivencia de enfermedad es individual (y/o familiar) y será el malestar asociado y el afrontamiento realizado o percibido lo que nos ayude a conocer el impacto en el niño. En el estudio de Theunissen et al.⁽⁴¹⁾, la tristeza, la dificultad para hablar de los propios sentimientos, el miedo a estar solo, la pérdida de perspectiva y la pérdida de independencia fueron las emociones y sentimientos más frecuentes. Drake, Frost, & Collins⁽⁴²⁾ obtuvieron que la mitad de los niños en final de vida calificaron su grado de angustia como “bastante / mucho” y el 14% y 10% de los sujetos reportaron nerviosismo o preocupación respectivamente⁽⁴³⁾. También el malestar emocional encontrado en adultos en fase de final de vida es superior, situándolo algunos estudios en una incidencia de aproximadamente el 60%^(44,45) e incluso de superior al 70%⁽⁴⁶⁾.

El *Impacto en los otros*, se refiere a cómo afecta al paciente lo que les ocurre a las personas más significativas para ellos, siendo una de las fuentes principales de sufrimiento en los niños y adolescentes. El impacto psicológico y espiritual de la muerte de un niño no se limita al paciente y por lo tanto requiere la extensión de los esfuerzos de cuidado para incluir a los padres, hermanos, miembros de la familia extendida, compañeros y proveedores de atención médica⁽⁴⁷⁾. Los padres y los profesionales sanitarios también han reportado un malestar emocional persistente cuando el niño está próximo al final de la vida y experimenta un sufrimiento secundario a síntomas preocupantes⁽⁴⁸⁾. Estas circunstancias pueden afectar negativamente la salud física y mental⁽⁴⁹⁾. El sufrimiento recíproco tiene impacto tanto en el paciente como en los familiares⁽²¹⁾. Algunos autores explican que el comportamiento de afrontamiento del niño refleja el estilo de los padres para manejar la enfermedad⁽⁵⁰⁾.

Finalmente, los *Aspectos relacionales* se refieren a los cambios en las relaciones en general, Gaab et al.⁽⁵¹⁾ describen que los niños y niñas con enfermedad oncológica sienten que son tratados de manera diferente y esto les molesta. El aislamiento social experimentado por las limitaciones derivadas de la enfermedad y la confusión que pueden sentir los amigos con respecto a la enfermedad y las limitaciones físicas son factores que facilitan este cambio en la relación con sus iguales⁽⁵²⁾. Esto puede hacer que se sientan dependientes de los demás, distanciados de sus amigos y temerosos de ser ignorados o juzgados, todo lo cual aumenta la distancia entre ellos⁽³⁵⁾. Algunos estudios muestran que las relaciones pueden cambiar y generar conflictos familiares: la tristeza, la ansiedad y el dolor hacen que la familia discuta y se sienta frustrada, a pesar de la necesidad de estar juntos⁽⁵³⁾. Los niños con una enfermedad grave describen su familia como la principal fuente de apoyo, aunque afecte a las relaciones entre los miembros de la familia⁽⁵⁴⁾.

El equipo investigador considera como una limitación de este trabajo el hecho de que no se dispone de resultados concluyentes sobre la entrevista, al no tener analizadas sus propiedades psicométricas. No obstante, aunque es una propuesta inicial de un instrumento de detección o cribado en el ámbito de los Cuidados Paliativos Pediátricos, dada la experiencia previa del equipo de trabajo en la elaboración de este tipo de escalas^(23,27,29), creemos que esta herramienta supondrá un paso importante en la mejora de la atención integral de los niños y adolescentes con necesidades paliativas, a la vez de incrementar el cuerpo de conocimiento en este ámbito. La validez de contenido de la escala ESNA está avalada tanto por la evaluación realizada por jueces expertos como por los niños y adolescentes, demostrando, de forma preliminar, la idoneidad de la misma. Futuros estudios validarán las propiedades psicométricas de la escala y su utilidad clínica.

5. Conclusiones

En proceso de conocer datos concluyentes sobre la entrevista ESNA, consideramos que cumple con el objetivo de una herramienta de fácil administración, que evalúa el sufrimiento de los niños y adolescentes con enfermedades graves y necesidades paliativas. La validez de contenido de la escala realizada, tanto a través de jueces expertos como de los propios pacientes, ha demostrado de forma preliminar la idoneidad de esta. Así mismo, queremos resaltar el proceso de diseño y creación de la entrevista ESNA, que se ha ido construyendo y modificando con todas las aportaciones y modificaciones propuestas por los profesionales expertos y pacientes, y que todos valoraron que esta herramienta les podría ayudar. De hecho, esta escala es un instrumento que permite el inicio de un vínculo entre el paciente y el profesional sanitario con capacidad para proveer un soporte relacional, facilitando el abordaje de estos aspectos emocionales. La entrevista ESNA desarrollada permitirá monitorizar el sufrimiento de los niños y adolescentes con necesidades paliativas a lo largo del tiempo, y sus factores asociados ya que su administración reiterada en el tiempo no supondrá un malestar añadido y proporcionará datos sobre su evolución. De hecho, el conocimiento evolutivo de estos factores puede actuar como un elemento preventivo y consideramos que la propia entrevista ya es en sí misma una intervención psicológica para aliviar el sufrimiento en estos pacientes, tal y como se ha puesto en evidencia en los estudios sobre detección de malestar emocional en adultos con enfermedades avanzadas/final de vida.

6. Agradecimientos

Los autores de este estudio quieren agradecer especialmente a todos los niños, niñas y adolescentes que han participado en el diseño y validación del instrumento ESNA. Sin sus aportaciones no habría sido posible crear esta entrevista. También destacar la revisión de los profesionales expertos: *Carola del Rincón Fernández, M^a Rocío Escobar Ramírez, Cristina Gutiérrez Rada, Nora García García, Balma Soraya Hernández Moscoso, Jorge Maté Méndez, Pau Miquel Diego, Andrés Morales La Madrid, Lucía Navarro Marchena, Marta Pérez Campdepadrós, Ariadna Torres García, Marta Viñals Miralles, Javier Zamora Blasco e Irene Zschaeck Luzardo.*

7. Referencias Bibliográficas

1. Modelo organizativo de atención integral en la población infantil y juvenil con necesidades paliativas y en situación de final de vida. Dirección General de Planificación en Salud del Departamento de Salud. Barcelona: 2020. https://salutweb.gencat.cat/web/.content/_ambits-actuacio/Linies-dactuacio/Estrategies-de-salut/Sociosanitari/Documentacio/cures-paliatives-pediatricues-es.pdf
2. Connor SR, Downing J, Marston J. Estimating the global need for palliative care for children: A cross-sectional analysis. *J Pain Symptom Manage* 2017;53:171–7. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jpainsymman.2016.08.020>
3. European Association for Palliative Care, Grupo de Trabajo de Cuidados Paliativos para Niños. Fondazione Maruzza. Cuidados Paliativos Para Lactantes, Niños Y Jóvenes Los Hechos [Internet]. 2009. 62 p. [Acceso 2 de enero de 2023]. Disponible: : https://www.fondazionemaruzza.org/wp-content/uploads/2022/11/I-Fatti_esp.pdf
4. Levine DR, Cuvillo A, Nelson C, Lu Z, Mandrell BN, Baker JN. Hope-colored glasses: perceptions of prognosis among pediatric oncology patients and their parents. *JCO Oncol Pract* 2021;17(6):e730–9. <https://doi.org/10.1200/OP.20.00762>
5. Donnelly JP, Downing K, Cloen J, Fragen P, Gupton AW, Misasi J, et al. Development and assessment of a measure of parent and child needs in pediatric palliative care. *J Pain Symptom Manage* 2018; 55:1077–1084. <https://doi.org/10.1016/j.jpainsymman.2017.12.484>
6. Collins JJ, Devine TD, Dick GS, Johnson EA, Kilham HA, Pinkerton CR, et al. The measurement of symptoms in young children with cancer. *J Pain Symptom Manage* 2002;23:10–6. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(01\)00375-X](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(01)00375-X)
7. Woodgate RL, Degner LF, Yanofsky R. A different perspective to approaching cancer symptoms in children. *J Pain Symptom Manage* 2003;26:800–17. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(03\)00285-9](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(03)00285-9)
8. DeJong M, Fombonne E. Depression in paediatric cancer: an overview. *Psychooncology*. 2006;15:553–66. <https://doi.org/10.1002/pon.1002>
9. NICE. End of life care for infants, children and young people: planning and management. Full Guideline. Version 1.0. NICE Guideline. Draft for Consultation. 2016;(July):452. <https://www.nice.org.uk/guidance/ng61/resources/end-of-life-care-for-infants-children-and-young-people-with-life-limiting-conditions-planning-and-management-pdf-1837568722885>
10. European Association for Palliative Care. Impact: Estándares Para Cuidados Paliativos Pediátricos En Europa. *Eur J Palliat Care* 2007;14:109–14. <https://www.redpal.es/wp-content/uploads/2018/12/IMPACTSp.-estandares-CPP-Europa.pdf>

11. Benini F, Pappadatou D, Bernadá M, Craig F, De Zen L, Downing J, et al. International Standards for Pediatric Palliative Care: From IMPaCCT to GO-PPaCS. *J Pain Symptom Manage* 2022; 63,5: e529-e543. <https://doi.org/10.1016/j.jpainsymman.2021.12.031>
12. Shamseer L, Moher D, Clarke M, Ghersi D, Liberati A, Petticrew M, et al. Preferred reporting items for systematic review and meta-analysis protocols (PRISMA-P) 2015: elaboration and explanation. *BMJ* 2015;349:7647. <https://doi.org/10.1136/bmj.g7647>
13. Limonero JT, Gil-Moncayo F. Importance of psychological research in palliative care: barriers in its development 2014; 1: 1-3. <https://doi.org/10.17140/PMHCOJ-1-101>
14. Krikorian A, Limonero JT. An integrated view of suffering in palliative care. *J Palliat Care* 2012;28:41-9. <https://doi.org/10.1177/082585971202800107>
15. Bronfenbrenner U. Ecological models of human development. *Read Dev Child* 1994;2:37-43.
16. Bronfenbrenner U. *The Ecology of human development: Experiments by nature and design.* Harvard University Press; 1979. 352 p. <https://doi.org/10.1080/00131728109336000>
17. Bayés R, Arranz P, Barbero J, Barreto P. Propuesta de un modelo integral para una intervención terapéutica paliativa. *Med Paliativa* 1996;3:18-25.
18. Folkman S. Stress: Appraisal and coping. In: Gellman MD, Turner JR, editors. *Encyclopedia of Behavioral Medicine* [Internet]. New York, NY: Springer; 2013 [Acceso 10 de diciembre de 2022]. p. 1913-5. Disponible en: https://doi.org/10.1007/978-1-4419-1005-9_215
19. Cross WE. Ecological factors in human development. *Child Dev.* 2017;88:767-9. <https://doi.org/10.1111/cdev.12784>
20. Martino R, Catá E, Montalvo G, Rincón C del. Cuidados paliativos pediátricos: el afrontamiento de la muerte en el niño oncológico. *Psicooncología* 2008;425-38. <https://revistas.ucm.es/index.php/PSIC/article/view/PSIC0808220425A>
21. Wittenberg E, Ferrell B, Goldsmith J, Ragan SL, Paice J. Assessment of a Statewide Palliative Care Team Training Course: COMFORT Communication for Palliative Care Teams. *J Palliat Med* 2016;19:746-52. <https://doi.org/10.1089/jpm.2015.0552>
22. Bayés R, Limonero J. Prioridad en el tratamiento de los síntomas que padecen los enfermos oncológicos en situación terminal. *Med Paliativa* 1999;6:19-21. <https://doi.org/10.1016/j.gamo.2015.07.007>
23. Maté J, Mateo D, Bayés R, Casas C. Elaboración y propuesta de un instrumento para la detección del malestar emocional en enfermos al final de la vida. *Psicooncología* 2009;6:507-18. <https://revistas.ucm.es/index.php/PSIC/article/view/PSIC0909220507A>
24. Cassell EJ. The nature of suffering and the goals of medicine. *N Engl J Med* 1982;306:639-45. <https://doi.org/10.1056/NEJM198203183061104>
25. Hernández S, López C, Durá E. Indicadores de alteraciones emocionales y conductuales en menores oncológicos. *Psicooncología* 2009; 6: 311-25. <https://revistas.ucm.es/index.php/PSIC/article/view/PSIC0909220311A>
26. Weaver MS, Heinze KE, Bell CJ, Wiener L, Garee AM, Kelly KP, et al. Establishing psychosocial palliative care standards for children and adolescents with cancer and their families: An integrative review. *Palliat Med* 2016;30:212-23. <https://doi.org/10.1177/0269216315583446>
27. Collins JJ. Palliative care and the child with cancer. *Hematol Oncol Clin North Am* 2002;16:657-70. [https://doi.org/10.1016/S0889-8588\(02\)00020-5](https://doi.org/10.1016/S0889-8588(02)00020-5)
28. Davies B. Assessment of need for a children's hospice program. *Death Stud* 1996;20:247-68. <https://doi.org/10.1080/07481189608252780>

29. Sirito SV, Méndez JM, Ortega DM, Martí MB, Julvé CS, Martínez-Romans J, et al. Desarrollo de la escala EDSOL para la detección de la soledad existencial en enfermos al final de la vida. *Psicooncología* 2018;15:89–101. <http://dx.doi.org/10.5209/PSIC.59178>
30. Krikorian A, Limonero JT, Corey MT. Suffering assessment: A review of available instruments for use in palliative care. *J Palliat Med* 2013;16:130–42. <https://doi.org/10.1089/jpm.2012.0370>
31. Limonero JT, Maté J, Mateo D, González-Barboteo J, Bayés R, Bernaus M, et al. Development of the DME-C: A scale for detecting emotional distress in primary caregivers of patients living with advanced illness or approaching end of their lives. *Ansiedad Estres*. 2016;22:104–9. <https://doi.org/10.1016/j.anyes.2016.09.001>
32. Krikorian A, Limonero JT, Maté J. Suffering and distress at the end-of-life. *Psychooncology* 2012;21:799–808. <https://doi.org/10.1002/pon.2087>
33. Comas Carbonell E, Mateo-Ortega D, Busquets-Alibés E. The psychological experience of pediatric oncology patients facing life-threatening situations: A systematic review with narrative synthesis. *Palliat Support Care* 2021;19:733–43. <https://doi.org/10.1017/S1478951521000031>
34. Wolfe J, Orellana L, Ullrich C, Cook EF, Kang TI, Rosenberg A, et al. Symptoms and distress in children with advanced cancer: Prospective patient-reported outcomes from the PediQUEST study. *J Clin Oncol* 2015;33:1928–35. <https://doi.org/10.1200/JCO.2014.59.1222>
35. Kavas MV. How to increase the quality of a suffering experience: lessons derived from the diary narratives of a dying adolescent girl. *Omega (Westport)* 2018;76:256–95. <https://doi.org/10.1177/0030222817694667>
36. Stein A, Dalton L, Rapa E, Bluebond-Langner M, Hanington L, Stein KF, et al. Communication with children and adolescents about the diagnosis of their own life-threatening condition. *Lancet* 2019;393:1150–63. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(18\)33201-X](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(18)33201-X)
37. Montgomery KE, Vos K, Raybin JL, Ward J, Balian C, Gilger EA, et al. Comparison of child self-report and parent proxy-report of symptoms: Results from a longitudinal symptom assessment study of children with advanced cancer. *J Spec Pediatr Nurs* 2020;1–10. <https://doi.org/10.1111/jspn.12316>
38. Jalmzell L, Lövgren M, Kreicbergs U, Henter JI, Frost BM. Children with cancer share their views: tell the truth but leave room for hope. *Acta Paediatr Int J Paediatr* 2016;105:1094–9. <https://doi.org/10.1111/apa.13496>
39. Baggott C, Cooper BA, Marina N, Matthay KK, Miaskowski C. Symptom assessment in pediatric oncology: how should concordance between children's and parents' reports be evaluated? *Cancer Nurs* 2014;37:252–62. <https://doi.org/10.1097/NCC.0000000000000111>
40. Masera G, Spinetta JJ, Jankovic M, Ablin AR, D'Angio GJ, Van Dongen-Melman J, et al. Guidelines for assistance to terminally ill children with cancer: A report of the SIOP working committee on psychosocial issues in pediatric oncology. *Med Pediatr Oncol* 1999;32:44–8. [https://doi.org/10.1002/\(SICI\)1096-911X\(199901\)32:1%3C44::AID-MPO9%3E3.0.CO;2-P](https://doi.org/10.1002/(SICI)1096-911X(199901)32:1%3C44::AID-MPO9%3E3.0.CO;2-P)
41. Theunissen MJM, Hoogerbrugge PM, Van Achterberg T, Prins JB, Vernooij-Dassen MJFJ, Van Den Ende CHM. Symptoms in the palliative phase of children with cancer. *Pediatr Blood Cancer* 2007;49:160–5. <https://doi.org/10.1002/pbc.21042>
42. Drake R, Frost J, Collins JJ. The symptoms of dying children. *J Pain Symptom Manage* 2003;26:594–603. [https://doi.org/10.1016/S0885-3924\(03\)00202-1](https://doi.org/10.1016/S0885-3924(03)00202-1)

43. Kersun LS, Shemesh E. Depression and Anxiety in Children at the End of Life. *Pediatr Clin North Am* 2007;54:691–708. <https://doi.org/10.1016/j.pcl.2007.06.003>
44. Limonero JT, Mateo D, Maté-Méndez J, González-Barboteo J, Bayés R, Bernaus M, et al. Evaluación de las propiedades psicométricas del cuestionario de Detección de Malestar Emocional (DME) en pacientes oncológicos. *Gac Sanit* 2012;26:145–52. <https://doi.org/10.1016/j.gaceta.2011.07.016>
45. Meggiolaro E, Berardi MA, Andritsch E, Nanni MG, Sirgo A, Samorì E, et al. Cancer patients' emotional distress, coping styles and perception of doctor-patient interaction in European cancer settings. *Palliat Support Care* 2016;14:204–11. <https://doi.org/10.1017/S1478951515000760>
46. Rodríguez Bruzos E, Fraguell Hernando C, Navarro Rodríguez M, Escolà Fustero A, de Quadras Roca S, Argilés Huguet M, et al. Malestar emocional y estrategias de afrontamiento en pacientes avanzados ante la situación de final de vida. *Med Paliativa* 2019;26:198–204. <https://doi.org/10.20986/medpal.2019.1062/2019>
47. Hinds PS, Schum L, JN B, Wolfe J. Key factors affecting dying children and their families. *J Palliat Med*. 2005;8:S-70 1p. <https://doi.org/10.1089/jpm.2005.8.s-70>
48. Haley JM, Walker GA. Discovering the strength of parents whose children are at end of life. *J Hosp Palliat Nurs* 2016;18:139–48. <https://doi.org/10.1097/NJH.0000000000000225>
49. Edelstein H, Schippke J, Sheffe S, Kingsnorth S. Children with medical complexity: a scoping review of interventions to support caregiver stress. *Child Care Health Dev* 2017;43:323-33. <https://doi.org/10.1111/cch.12430>
50. Burns WJ, Zweig AR. Self-concepts of chronically ill children. *J Genet Psychol Res Theory Hum Dev* 1980;137:179–90. <https://doi.org/10.1080/00221325.1980.10532817>
51. Gaab EM, Owens RG, MacLeod RD. The voices of Young New Zealanders Involved in Pediatric Palliative Care. *J Palliat Care* 2013;29:186-92. <https://doi.org/10.1177/082585971302900308>
52. Montoya-Juárez R, García-Caro MP, Schmidt-Rio-Valle J, Campos-Calderón C, Sorroche-Navarro C, Sánchez-García R, et al. Suffering indicators in terminally ill children from the parental perspective. *Eur J Oncol Nurs* 2013;17:720–5. <https://doi.org/10.1016/j.ejon.2013.04.004>
53. Eilertsen MEB, Lövgren M, Wallin AE, Kreicbergs U. Cancer-bereaved siblings' positive and negative memories and experiences of illness and death: A nationwide follow-up. *Palliat Support Care* 2018;16:406–13. <https://doi.org/10.1017/S1478951517000529>
54. Ghirotto L, Busani E, Salvati M, Di Marco V, Caldarelli V, Artioli G. Researching children's perspectives in pediatric palliative care: A systematic review and meta-summary of qualitative research. *Palliat Support Care* 2018;1–12. <https://doi.org/10.1017/S1478951518000172>