

ORIGINAL

Malestar psicológico, ajuste diádico y dinámica familiar tras el diagnóstico prenatal de cardiopatía congénita



Mireia Salvador*, Anna Vilaregut, Rosana Moyano, Queralt Ferrer, Olga Gòmez, Teresa Moratalla y Elisa Llurba

Facultat de Psicologia, Ciències de l'Educació i l'Esport Blanquerna, Universitat Ramon Llull, Barcelona, España

Recibido el 16 de noviembre de 2020; aceptado el 7 de mayo de 2021

Disponible en Internet el 2 de agosto de 2021

PALABRAS CLAVE

Prenatal;
Cardiopatía
congénita;
Malestar psicológico;
Ajuste diádico;
Dinámica familiar

Resumen

Introducción: Las cardiopatías congénitas (CC) se encuentran entre las enfermedades congénitas más frecuentes. Cuando se informa a los padres y las madres del diagnóstico de una CC durante el embarazo, tienen que afrontar una serie de cambios psicológicos a nivel individual e interpersonal. El objetivo del estudio es evaluar el impacto psicológico que produce en los padres el diagnóstico de una CC en el periodo prenatal. La muestra incluyó 214 participantes, madres y sus parejas (grupo de casos: 57 gestantes con fetos diagnosticados de CC y sus parejas; grupo control: 50 gestantes y sus parejas).

Método: Administración del BSI-18, el DAS y el FACES-III tras el diagnóstico prenatal.

Resultados: Muchos progenitores (alrededor del 83,6%) pasaron por fases de choque emocional y negación tras recibir el diagnóstico de una enfermedad que necesitaban afrontar y aceptar. A nivel individual, el 35,1% de los padres y el 47,4% de las madres tuvieron puntuaciones significativas en el malestar psicológico. A nivel de la pareja, tanto los padres (77%) como las madres (82,4%) presentaron un ajuste diádico idealizado. Por último, el 43,9% de los padres y el 42,2% de las madres reflejaron una dinámica familiar moderada.

Conclusión: Los resultados ilustran la complejidad de la etapa inicial que atravesaban las parejas participantes.

© 2021 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: mireiasl3@blanquerna.url.edu (M. Salvador).

KEYWORDS

Prenatal;
Congenital heart
disease;
Psychological
distress;
Dyadic adjustment;
Family dynamics

Psychological distress, dyadic adjustment and family dynamics after prenatal diagnosis of congenital heart disease**Abstract**

Introduction: Congenital heart disease (CHD) is one of the most frequent congenital diseases. When expectant fathers and mothers are informed of a CHD during pregnancy, they have to confront a series of individual and interpersonal psychological changes. The aim of the study was to evaluate the psychological impact of a prenatal diagnosis of CHD on expectant parents. The sample included 214 participants, mothers and their partners (case group, 57 pregnant women carrying a fetus with CHD and their partners; and control group, 50 pregnant women and their partners).

Method: Administration of BSI-18, DAS and FACES-III following prenatal diagnosis.

Results: Many parents (approximately 83.6%) went through stages of shock and denial in response to the diagnosis of disease that they had to confront and accept. At the individual level, 35.1% of fathers and 47.4% mothers had clinically significant scores of psychological distress. At the couple level, both fathers (77%) and mothers (82.4%) had expressed an idealized dyadic adjustment. Lastly, the perception of the family dynamic by 43.9% of fathers and 42.2% of mothers was in the mid-range.

Conclusion: The results highlight the complexity of the initial stage that these couples were going through.

© 2021 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

Las cardiopatías congénitas (CC) son una de las causas más frecuentes de mortalidad infantil, con una incidencia aproximada de 8 casos por 1.000 recién nacidos vivos^{1,2}. Se encuentran entre las malformaciones congénitas más comunes y son responsables del 20% de los recién nacidos muertos³.

Actualmente, gracias a los avances tecnológicos en la ecocardiografía fetal, la obstetricia y la medicina fetal, las malformaciones cardíacas se diagnostican con mayor precisión y más detalladamente en el período prenatal⁴. El diagnóstico precoz de las malformaciones cardíacas proporciona a las familias información precisa sobre la condición clínica del feto durante el embarazo, el pronóstico posnatal e incluso las intervenciones quirúrgicas que podrían requerirse en el futuro⁵.

El nacimiento de un hijo siempre conlleva una serie de modificaciones en la estructura familiar, pero cuando además se ha diagnosticado una patología, los futuros padres afrontan una situación inesperada, inquietante, desconocida y desconcertante que suelen procesar de manera negativa⁶. Esto altera las expectativas del hijo esperado y requiere procesar la pérdida del hijo sano imaginario⁷⁻⁹. El diagnóstico de una CC suele generar ansiedad, desorientación, angustia y sentimientos de culpa. En muchos casos surgen también sentimientos de frustración, ira y desesperación, y la sensación de que los recursos de la familia para afrontar la situación son limitados^{10,11}.

Varios investigadores han documentado el impacto de las CC en niños, que en muchos casos van a sufrir hospitalizaciones, visitas médicas y procedimientos dolorosos a lo largo de toda la vida. Pero los niños no son los únicos

que sufren las consecuencias fisiológicas y psicológicas de la CC, ya que esta también tiene repercusiones importantes sobre la dinámica familiar^{12,13}. Estudios de padres de niños con hiperplasia suprarrenal congénita por déficit de 21-hidroxilasa demuestran el enorme impacto psicológico sobre las familias. Los pacientes afectados requieren tratamiento de por vida, y las hospitalizaciones y estresores recurrentes pueden afectar negativamente a la relación de los padres entre sí y a la organización familiar¹⁴. Por otro lado, hay estudios que indican que la reacción de las familias al diagnóstico de cáncer en un niño puede cambiar con el paso del tiempo. La respuesta inicial suele ser el choque emocional y el pánico, seguidos de depresión, ira y culpa al inicio del tratamiento¹⁵. En estos casos, el impacto emocional del diagnóstico también afecta a la vida diaria de los padres, así como a la organización y al funcionamiento familiares^{16,17}.

Otro estudio comparó a madres de niños con diagnóstico prenatal de CC con madres de niños diagnosticados tras el nacimiento¹⁸. Los autores encontraron que el momento del diagnóstico podría ser un factor importante, pues los padres informados de la patología en el período prenatal pueden comenzar el proceso de afrontar y aceptar la situación en ese momento. De este modo, los padres pueden jugar un papel más activo en la planificación de los cuidados prenatales y posnatales del niño y están mejor preparados para el nacimiento y la futura evolución de la enfermedad¹⁹.

Diversos estudios en pacientes con CC han permitido conocer bien los aspectos físicos y biológicos asociados a las malformaciones cardíacas y su evolución a nivel médico²⁰⁻²⁴. En cambio, solo recientemente se ha empezado a investigar el funcionamiento familiar con respecto a la capacidad de las parejas para afrontar el diagnóstico de CC en el niño²⁵. A

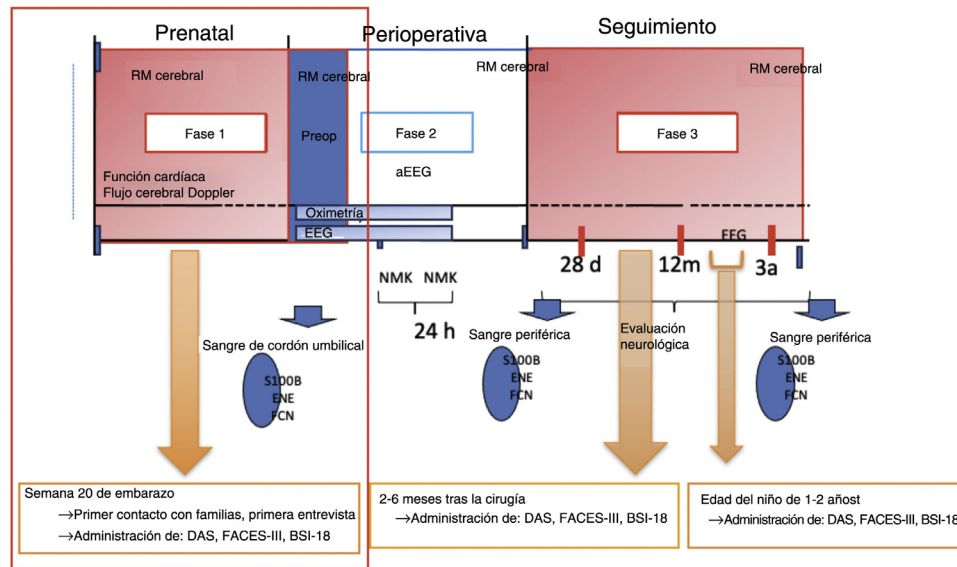


Figura 1 Protocolo de estudio.

pesar de este interés reciente, pocos estudios han analizado las diferencias en la percepción de la situación en base al sexo de los padres^{26,27}.

El objetivo del estudio fue identificar las dificultades de los padres que reciben un diagnóstico prenatal de CC grave. Para ello, se recogieron y analizaron datos sobre sus dificultades a nivel individual, de pareja y de familia en la fase inicial tras el diagnóstico prenatal de CC en comparación con parejas de control. Uno de los objetivos secundarios era evaluar si había diferencias según el rol de paternidad (padre o madre). También se recogieron datos sobre el malestar psicológico, el ajuste diádico y la dinámica familiar con objeto de establecer qué intervenciones psicológicas y qué tipo de apoyo podrían ser beneficiosos para las parejas durante este largo proceso en el hospital.

Método

Estudio multicéntrico prospectivo de casos y controles realizado en dos hospitales universitarios en Barcelona, España (Hospital Vall d'Hebron y Hospital Sant Joan de Déu).

El protocolo de estudio, incluyendo los criterios de inclusión y de exclusión, se ha detallado en una publicación previa (<https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31506079/>). Como casos, fueron elegibles para inclusión en el estudio mujeres con más de 20 semanas de gestación con fetos diagnosticados de malformación cardíaca atendidas en la unidad de medicina fetal de los hospitales participantes. Se invitó a gestantes con fetos sanos atendidas en los mismos hospitales a nivel ambulatorio a participar como controles. El protocolo de estudio fue aprobado por el comité ético de cada hospital, y se obtuvo del consentimiento informado por escrito de todos los participantes.

El estudio se enmarcaba en un proyecto de mayor envergadura aprobado por el Comité Ético de Investigación Clínica del Hospital Vall d'Hebron en Barcelona (CEIC PR [AMI] 307/2012). Este proyecto comprende 4 fases, cada una con

sus propios objetivos y protocolos. El presente artículo se centra en el objetivo principal de la primera fase (fig. 1).

Todos los participantes dieron su consentimiento por escrito para el almacenamiento y el uso de los datos obtenidos para la investigación. Las sesiones del estudio estaban formadas por dos partes. En la primera se informaba a la pareja sobre la finalidad de la investigación y el protocolo de estudio, y se obtenía su consentimiento informado. La segunda parte se dedicó a la recogida de datos. Se entrevistó a la vez a ambos miembros de la pareja, y a continuación se administraron los siguientes cuestionarios de manera individual: el *Brief Symptoms Inventory-18* (BSI-18), el *Dyadic Adjustment Scale* (DAS) y el *Family Adaptability and Cohesion Evaluation Scale*, versión III (FACES-III).

Evaluación psicológica de los padres

El BSI-18 es un inventario breve de síntomas psicopatológicos diseñado para detectar el malestar psicológico y los síntomas psiquiátricos más prevalentes en la población general y en los pacientes médicos que acuden a la atención primaria. También es útil en la detección del malestar psicológico asociado a los trastornos psiquiátricos más graves, debido a que los síntomas de somatización, depresión y ansiedad son muy frecuentes en estos trastornos. Como su nombre indica, el BSI-18 consta de 18 ítems (6 de somatización, 6 de depresión y 6 de ansiedad) y la puntuación total puede ser de 0 a 72 puntos. Un índice de severidad global (ISG) superior a 63 es indicativo de sintomatología clínicamente significativa²⁸.

El DAS es uno de los instrumentos más utilizados para evaluar la calidad y el ajuste de la pareja²⁹. Es una escala multidimensional aplicable al matrimonio y en las relaciones de pareja con características similares. Este cuestionario consta de 32 ítems, divididos en 4 subescalas (satisfacción diádica, consenso diádico, cohesión diádica y expresión afectiva) que permiten obtener una puntuación global del ajuste diádico; la puntuación máxima es de 151, considerándose normales puntuaciones entre 100 y 125³⁰.

Tabla 1 Características demográficas de los grupos de estudio

Características demográficas					
	Grupo de casos		Grupo control		
	n	%	n	%	p
<i>Estado civil</i>					
Casados	41	71,9	35	70,0	0,826
No casados	16	28,1	15	30,0	0,826
<i>Nivel educativo</i>					
Título universitario	53	46,5	57	57,0	0,125
BUP	1	0,9	1	1,0	0,926
FP	7	6,1	1	1,0	0,048
EGB	6	5,3	8	8,0	0,419
Formación profesional	7	6,1	21	21,0	0,001
Bachillerato	7	6,1	4	4,0	0,479
ESO	21	18,4	8	8,0	0,026
Primaria	9	7,9	0	0	0,004
Sin educación formal	3	2,6	0	0	0,102
<i>Tipo de embarazo</i>					
Concepción espontánea	49	86,0	46	92,0	0,324
Tratamiento de fertilidad	8	14,0	4	8,0	0,324
<i>Lugar de residencia</i>					
Cataluña	52	91,2	49	98,0	0,129
Fuera de Cataluña	5	8,8	1	2,0	0,129
<i>Situación laboral</i>					
Empleo activo	88	77,2	100	100	0,000
Sin empleo	26	22,8	0	0	0,000
<i>Número de hijos</i>					
Ninguno	58	50,9	70	70	0,004
Al menos 1	56	49,1	30	30	0,004

BUP: bachillerato unificado polivalente; EGB: educación general básica; ESO: educación secundaria obligatoria; FP: formación profesional.

p: diferencia de proporciones.

Los valores mostrados para el estado civil, lugar de residencia y embarazo se refieren a parejas participantes (57 en el grupo de casos y 50 en el grupo control). Los valores mostrados para el nivel educativo, situación laboral y número de hijos se refieren a participantes individuales (114 en el grupo de casos y 100 en el grupo control).

El FACES-III es un instrumento de 20 ítems basado en el modelo circumpleso desarrollado por Olson, Sprenkle y Russell en 1979^{31,32}. El FACES-III evalúa las dos dimensiones principales del modelo: la cohesión (con 4 categorías: desvinculada, separada, conectada y aglutinada) y la adaptabilidad (con 4 categorías: rígida, estructurada, flexible y caótica)³³. La evaluación se basa en una distribución de 16 tipologías de dinámica familiar y 3 tipologías de familia (equilibrada, moderada y extrema).

También se recogieron datos sobre las características sociodemográficas (sexo, edad, lugar de residencia, educación, empleo, etc.) y el diagnóstico del niño.

El análisis de datos se realizó con el paquete informático IBM SPSS Statistics para Windows, versión 23.0 (2015; IBM Corp, Armonk, NY, EE.UU.). Se realizó un análisis descriptivo, de frecuencias y correlacional. Para el análisis correlacional se empleó la prueba de Spearman, y se empleó la U de Mann-Whitney y la t de Student para comparar grupos y madres y padres. Se realizó el mismo análisis para

los resultados del BSI-18, el DAS y el FACES-III. También se llevó a cabo un análisis multivariado de las características sociodemográficas de los participantes.

Resultados

La muestra final consistía de 214 participantes, es decir, 107 parejas (unidades familiares), de las que 57 eran parejas que recibieron el diagnóstico de CC durante el embarazo (grupo de casos). Las 50 parejas restantes se incluyeron como controles (grupo control).

En el grupo de casos, los participantes tenían de 20 a 46 años de edad (media: 33,06; desviación estándar [DE]: 5,66). En cuanto al nivel educativo, el 46,5% (n = 53) tenían título universitario y solo el 2,6% (n = 3) carecían de educación formal. En lo concerniente al estado civil, el 71,9% de las parejas (n = 41) estaban casadas y el 28,1% (n = 16) no lo estaban. En cuanto al tipo de embarazo, el 86% de las pare-

Tabla 2 Anomalías congénitas

Anomalías congénitas (casos)		
	n	%
TGV	16	28,2
CI	9	15,8
TF	12	21,1
CAV	6	10,5
Hipoplasia del arco aórtico/coartación de la aorta	14	24,6

CAV: comunicación auriculoventricular; CI: comunicación interventricular; TF: tetralogía de Fallot; TGV: transposición de grandes vasos.

jas (n=49) habían concebido espontáneamente mientras que el 14% (n=8) habían recibido tratamiento de fertilidad. En el grupo de control, la edad de los participantes oscilaba entre 25 y 49 años, con excepción de un padre que tenía 79 (media: 34,66; DE: 6,48). En cuanto a su educación, el 57% (n=57) tenían título universitario. La distribución por estado civil fue 70% casados (n=35) y 30% no casados (n=15). En lo referente al embarazo, el 92% de las parejas (n=46) concibieron espontáneamente y el 8% (n=4) recibieron tratamiento de fertilidad (tabla 1).

Los datos sobre las CC se obtuvieron de los historiales médicos. Se analizaron las patologías más graves asociadas a niveles mayores de afección neurológica: diagnóstico de transposición de grandes vasos (TGV) en el 28,1% de los fetos (n=16), comunicación interventricular (CI) en el 15,8% (n=9), tetralogía de Fallot (TF) en el 21,1% (n=12) y canal auriculoventricular (CAV) en el 10,5% (n=6).

También se diagnosticó hipoplasia del arco aórtico/coartación de la aorta en el 24,6% de los fetos (n=14) (tabla 2).

Antes de realizar el análisis multivariante, se compararon distintas variables entre el grupo de casos y el grupo control, comprobándose que los grupos eran similares en casi todas estas características (tabla 1). Esto corrobora que no había diferencias en las características y circunstancias personales que pudieran haber afectado a sus respuestas a los distintos instrumentos empleados para evaluar las reacciones de los padres al diagnóstico. Se realizó un análisis multivariante de las características demográficas de los participantes. No se detectaron diferencias significativas en la fase del diagnóstico. Parece que las características demográficas de los participantes no influenciaron su respuesta al diagnóstico de sus hijos.

Resultados del BSI-18

Las comparaciones intragrupo mostraron que, tanto en el grupo de casos como en el grupo control, las puntuaciones de padres y madres fueron similares en todas las subescalas y en el ISG, con una media de 57,42 en los padres del grupo de casos (DE: 10,315), de 61,32 en las madres del grupo de casos (DE: 8,765), de 48,43 en los padres del grupo control (DE: 7,805) y de 52,71 en las madres del grupo control (DE: 7,500) (tabla 3).

El análisis mostró que, en el grupo de casos, el 35,09% de los padres (n=20) y el 47,37% de las madres (n=27) tuvieron puntuaciones clínicas. En comparación, en el grupo control solo el 13,73% de las madres (n=7) tuvieron puntuaciones clínicas (tabla 4).

Tabla 3 Resultados del BSI-18 de los padres y madres en el grupo de casos y grupo control

	Grupo de casos								Grupo control							
	Padres (n=57)				Madres (n=57)				Padres (n=49)				Madres (n=51)			
	Min	Max	Media	DE	Min	Max	Media	DE	Min	Max	Media	DE	Min	Max	Media	DE
Som	43	80	53,09	10,156	40	81	57,40	10,351	40	58	46,61	5,267	40	75	55,25	9,658
Dep	42	78	56,28	9,449	41	73	59,44	7,776	41	65	47,29	6,871	41	69	47,37	8,047
Ans	40	77	59,42	10,519	38	80	62,93	9,053	37	67	52,22	9,141	38	67	52,80	8,314
ISG	37	79	57,42	10,315	35	78	61,32	8,765	37	60	48,43	7,805	35	69	52,71	7,500

Ans: ansiedad; DE: desviación estándar; Dep: depresión; ISG: índice de severidad global; Som: somatización.

Tabla 4 Puntuaciones clínicas de padres y madres en el grupo de casos y grupo control

Puntuación clínica	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres		Madres		Padres		Madres	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Somatización	10	17,54	16	28,07	—	—	13	25,50
Depresión	12	21,05	21	36,84	2	4,08	3	5,88
Ansiedad	26	45,61	35	61,40	8	16,33	10	19,61
ISG	20	35,09	27	47,37	—	—	7	13,73

ISG: índice de severidad global.

Tabla 5 Correlación en los resultados del BSI en el grupo de casos y grupo control y significación estadística

Correlación	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres		Madres		Padres		Madres	
	rho	p	rho	p	rho	p	rho	p
Somatización-depresión	0,572**	0,000	0,309*	0,019	0,194	0,183	0,309*	0,019
Somatización-ansiedad	0,491**	0,000	0,649**	0,000	0,276	0,055	0,649**	0,000
Depresión-ansiedad	0,749**	0,000	0,660**	0,000	0,734**	0,000	0,660**	0,000

rho: coeficiente de correlación de Spearman.

* p < 0,05.

** p < 0,01.

Tabla 6 Resultados del DAS de los padres y las madres en el grupo de casos y el grupo control

	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres		Madres		Padres		Madres	
	n	%	n	%	n	%	n	%
<i>Consenso</i>								
Conflictivo	—	—	1	1,8	—	—	—	—
Satisfactorio	36	63,3	38	66,5	36	73,4	32	62,7
Idealizado	21	36,7	18	31,7	13	26,6	19	37,3
<i>Satisfacción</i>								
Satisfactorio	13	23	10	17,6	7	14,3	7	13,8
Idealizado	44	77	47	82,4	42	85,7	44	86,2
<i>Cohesión</i>								
Conflictivo	—	—	1	1,8	—	—	—	—
Satisfactorio	6	10,6	7	12,4	4	8,2	3	6
Idealizado	51	89,4	49	85,8	45	91,8	48	94
<i>Exp. de afecto</i>								
Conflictivo	1	1,8	—	—	—	—	—	—
Satisfactorio	16	28,1	17	29,9	16	32,6	16	31,4
Idealizado	40	70,1	40	70,1	33	67,4	35	68,6

Dentro de los grupos, se observaron diferencias significativas entre padres y madres en el malestar psicológico ($p = 0,04$ en el grupo de casos y $p = 0,18$ en el grupo control), la somatización ($p = 0,043$ en el grupo de casos y $p < 0,001$ en el grupo control) y la depresión ($p = 0,045$ en el grupo de casos y $p = 0,042$ en el grupo control).

En los padres del grupo control se observaron correlaciones significativas entre la somatización y la ansiedad ($p < 0,001$), la somatización y la depresión ($p < 0,001$) y la ansiedad y la depresión ($p < 0,001$). En las madres del grupo de casos se observaron correlaciones significativas entre la somatización y la ansiedad ($p < 0,001$) y entre la ansiedad y la depresión ($p < 0,001$). La única correlación encontrada en el grupo control, tanto en madres como padres, fue entre la ansiedad y la depresión ($p < 0,001$) (tabla 5).

Se compararon los grupos por medio de la prueba U de Mann-Whitney para determinar si había diferencias estadísticamente significativas entre ellos. Se encontraron diferencias significativas en el malestar psicológico ($p < 0,001$) y en las subescalas de somatización ($p = 0,002$), depresión ($p < 0,001$) y ansiedad ($p < 0,001$).

Resultados del DAS

Los resultados de la comparación intragrupo muestran que tanto padres como madres en los grupos de casos y control tendían a estar satisfechos con el nivel de consenso de la pareja. En el grupo de casos, el 63,3% de los padres ($n = 36$) y el 66,5% de las madres ($n = 38$) expresaron satisfacción con el nivel de consenso diádico. En el grupo control, estos porcentajes eran del 73,4% en los padres ($n = 36$) y del 67% en las madres ($n = 32$).

Las puntuaciones de la satisfacción diádica fueron altas en ambos grupos tanto en padres como en madres. En el grupo de casos, el 77% de los padres ($n = 44$) y el 82,4% de las madres ($n = 47$) expresaron estar satisfechos. En el grupo control, estos porcentajes fueron del 85,7% en los padres ($n = 42$) y del 86,2% en las madres ($n = 44$).

Los participantes en ambos grupos percibían positivamente su nivel de cohesión con la pareja. En el grupo de casos, el 89,4% de los padres ($n = 51$) y el 85,8% de las madres ($n = 49$) tenían una percepción idealizada de su cohesión con su pareja. En el grupo control, el 91,8% de los padres ($n = 45$)

y el 94% de las madres ($n=48$) también tenían una percepción idealizada.

Los participantes en ambos grupos también expresaron percepciones positivas de la expresión de afecto en la pareja. La expresión de afecto diádica se describió como satisfactoria por el 70,1% de los padres y de las madres en el grupo de casos ($n=40$) y el 67,4% de los padres ($n=33$) y el 68,6% de las madres ($n=35$) en el grupo control (tabla 6).

Los participantes de los dos grupos presentaron una percepción idealizada de sus relaciones: el 57,7% de los padres y el 50,4% de las madres en el grupo de casos, y el 73,7% de los padres y el 66,6% de las madres en el grupo control (tabla 7).

Al comparar a madres y padres dentro de cada grupo, se observaron diferencias significativas entre ellos en el grupo control en la percepción de la cohesión ($p=0,024$).

En los padres del grupo de casos se encontraron correlaciones estadísticamente significativas entre el consenso y la cohesión ($p<0,001$) y entre el consenso y la expresión de afecto ($p<0,001$). En las madres del grupo de casos se encontraron correlaciones estadísticamente significativas entre el consenso y la satisfacción ($p<0,001$) y entre el consenso y la expresión de afecto ($p<0,001$). Las correlaciones encontradas en los padres en el grupo control fueron entre el consenso y la cohesión ($p=0,000$) y entre la satisfacción y la expresión de afecto ($p<0,001$). En las madres del grupo control había correlaciones significativas entre el consenso y la satisfacción ($p=0,004$), el consenso y la cohesión ($p<0,001$) y el consenso y la expresión de afecto ($p=0,009$) (tabla 8).

Se encontraron diferencias estadísticamente significativas entre el grupo de casos y el grupo control en la subescala de cohesión del DAS ($p=0,004$).

Resultados del FACES-III

La comparación intragrupo mostró que, en el grupo de casos, la dinámica percibida con mayor frecuencia por los padres fue la caóticamente conectada (29,8%; $n=17$), seguida de la caóticamente aglutinada (21,1%; $n=12$). Según el modelo circunplejo, estas son tipologías familiares moderadas y extremas. En las madres del grupo de casos, la dinámica percibida más frecuentemente fue la caóticamente aglutinada (22,8%; $n=13$), seguida de la caóticamente conectada (21,1%; $n=12$), tipos de familia extremos según el modelo circunplejo. En el grupo control, la dinámica percibida con mayor frecuencia por los padres fue la caóticamente conectada (49%; $n=24$), una tipología moderada dentro del esquema. La dinámica caóticamente conectada también fue la percibida con mayor frecuencia por las madres (31,4%; $n=16$), seguida de la caóticamente aglutinada (19,6%; $n=10$), dinámicas que se encuentran en los cuadrantes moderados y extremos del modelo circunplejo (tabla 9, fig. 2).

El análisis comparativo no encontró diferencias significativas según el sexo en ninguno de los grupos.

Como muestra la tabla 10, casi todos los participantes en cada grupo percibían dinámicas familiares que se encontraban en el rango moderado.

La comparación de los dos grupos encontró diferencias estadísticamente significativas en la percepción de la diná-

mica familiar entre las parejas que esperaban un hijo con CC y las que esperaban un hijo sano ($p=0,029$).

Discusión

Los resultados del estudio ilustran el afrontamiento por parte de padres y madres del diagnóstico de una enfermedad grave como son las CC en el hijo que esperan.

Varios autores han descrito las reacciones de los padres tras recibir el diagnóstico de un hijo³⁴. Los padres se ven obligados a afrontar simultáneamente la transición a la paternidad y el diagnóstico de CC en el hijo, a la vez que aspectos médicos, económicos, sociales, familiares y emocionales, entre otros, relacionados con el diagnóstico⁹. Estudios previos^{16,17} han descrito la crisis que origina en la familia el diagnóstico en el niño, con cambios significativos en las relaciones entre familiares, sobre todo entre los miembros de la pareja y el niño enfermo. Por añadidura, la cohesión diádica puede verse afectada hasta el punto de que toda la atención se centre en el niño enfermo, lo que afecta negativamente a la satisfacción de la pareja y a la consecución de objetivos comunes^{13,14}. Las familias desarrollan distintas estrategias para afrontar la nueva situación y se adaptan a ella con mayor o menor éxito¹⁶.

Los resultados del BSI-18 indican que la mayoría de los progenitores en ambos grupos no tenían puntuaciones clínicas. Dicho de otro modo, su ISG se encontraba bajo el umbral clínico de 63 puntos²⁸. Esto difería de los resultados de estudios previos^{10,11}, que reportaron que al afrontar una situación crítica de estas características, los padres tendían a exhibir niveles altos de ansiedad debido al miedo a las posibles consecuencias de la enfermedad, y también tendían a tener puntuaciones altas de malestar psicológico en respuesta a estos diagnósticos graves. En nuestro estudio no se encontraron diferencias significativas entre casos y controles. Esto podría deberse a que los cuestionarios se administraron inmediatamente después de informar a las parejas del diagnóstico. Los progenitores estaban atravesando un momento de incertidumbre y confusión durante el embarazo, y quizá no habían asimilado por completo la información que se les había dado. Lo que es de esperar, dado lo perturbador de un diagnóstico que coloca a la familia en territorio desconocido, pues no está familiarizada con los procesos que habrán de atravesar con su hijo ni con el curso probable de la enfermedad congénita^{10,11,15}.

También cabe destacar que, si bien los resultados no fueron clínicamente significativos, tanto en el grupo de casos como en el grupo control las madres tuvieron puntuaciones mayores en el ISG. Las mujeres embarazadas a menudo experimentan cambios hormonales que afectan tanto a su estado físico como a su estado de ánimo. El análisis encontró diferencias significativas entre las subescalas, pero en ambos grupos hubo correlaciones tanto en madres como en padres entre la ansiedad y la depresión. Concretamente, niveles mayores de depresión se asociaban a niveles menores de ansiedad, y viceversa. En los padres del grupo de casos también había correlaciones significativas entre la somatización y la ansiedad y entre la somatización y la depresión, de manera que niveles mayores de somatización se asociaban a niveles más bajos de depresión, y viceversa. Por lo tanto, cabe concluir que la respuesta a un mismo

Tabla 7 Tipo de ajuste diádico

	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres		Madres		Padres		Madres	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Conflictivo	1	1,8	2	3,6	0	0	0	0
Satisfactorio	23	40,5	21	37	13	26,3	17	33,4
Idealizado	33	57,7	34	50,4	36	73,7	34	66,6

Tabla 8 Correlación entre las subescalas del DAS y significación estadística

Correlación	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres		Madres		Padres		Madres	
	rho	p	rho	p	rho	p	rho	p
Consenso-Satisfacción	0,311*	0,018	0,471**	0,000	0,269	0,062	0,396**	0,004
Consenso-Cohesión	0,458**	0,000	0,305*	0,021	0,480**	0,000	0,473**	0,000
Consenso-Exp. de afecto	0,449**	0,000	0,464**	0,000	0,311*	0,029	0,361**	0,009
Satisfacción-Cohesión	0,287*	0,031	0,138	0,305	0,209	0,150	0,252	0,075
Satisfacción-Exp. de afecto	0,217	0,105	0,325*	0,014	0,489**	0,000	0,271	0,054
Cohesión-Exp. de afecto	0,168	0,211	0,255	0,056	0,111	0,450	0,101	0,479

rho: coeficiente de correlación de Spearman.

* p < 0,05.

** p < 0,01.

Tabla 9 Distribución de frecuencia de los 16 tipos de dinámica familiar en el grupo de casos y grupo control

Dinámica familiar	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres (n = 57)		Madres (n = 57)		Padres (n = 49)		Madres (n = 51)	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Caóticamente desvinculada	1	1	1	1,8	0	0	0	0
Caóticamente separada	2	3,5	4	7	4	8,2	5	9,8
Caóticamente conectada	17	29,8	12	21,1	24	49	16	31,4
Caóticamente aglutinada	12	21,1	13	22,8	3	6,1	10	19,6
Flexiblemente desvinculada	0	0	0	0	1	2	0	0
Flexiblemente separada	6	10,5	4	7	3	6,1	6	11,8
Flexiblemente conectada	6	10,5	8	14	6	12,2	6	11,8
Flexiblemente aglutinada	3	5,3	2	3,5	2	4,1	2	3,9
Estructuralmente desvinculada	0	0	1	1,8	0	0	0	0
Estructuralmente separada	2	3,5	1	1,8	0	0	2	3,9
Estructuralmente conectada	3	5,3	4	7	5	10,2	3	5,9
Estructuralmente aglutinada	0	0	2	3,5	1	2	1	2
Rígidamente separada	3	5,3	3	5,3	0	0	0	0
Rígidamente aglutinada	2	3,5	2	3,5	0	0	0	0

estresor (en este caso, el diagnóstico prenatal de CC en un hijo) y las estrategias empleadas para afrontarlo difieren en varones y en mujeres²⁶.

Los resultados del estudio del ajuste diádico por medio del cuestionario DAS mostraron que casi todos los padres y madres en el grupo de casos y en el grupo control tenían una percepción idealizada del ajuste en sus relaciones, ya que

la mayoría de los participantes obtuvieron puntuaciones de más de 125³⁰. Cabe mencionar que, en ambos grupos, independientemente del sexo y de la presencia de correlación o diferencias entre los grupos, las puntuaciones en la subescala de cohesión fueron significativamente más altas que en el resto de subescalas. Otro aspecto a resaltar es el de la percepción idealizada que tenían las parejas de su rela-

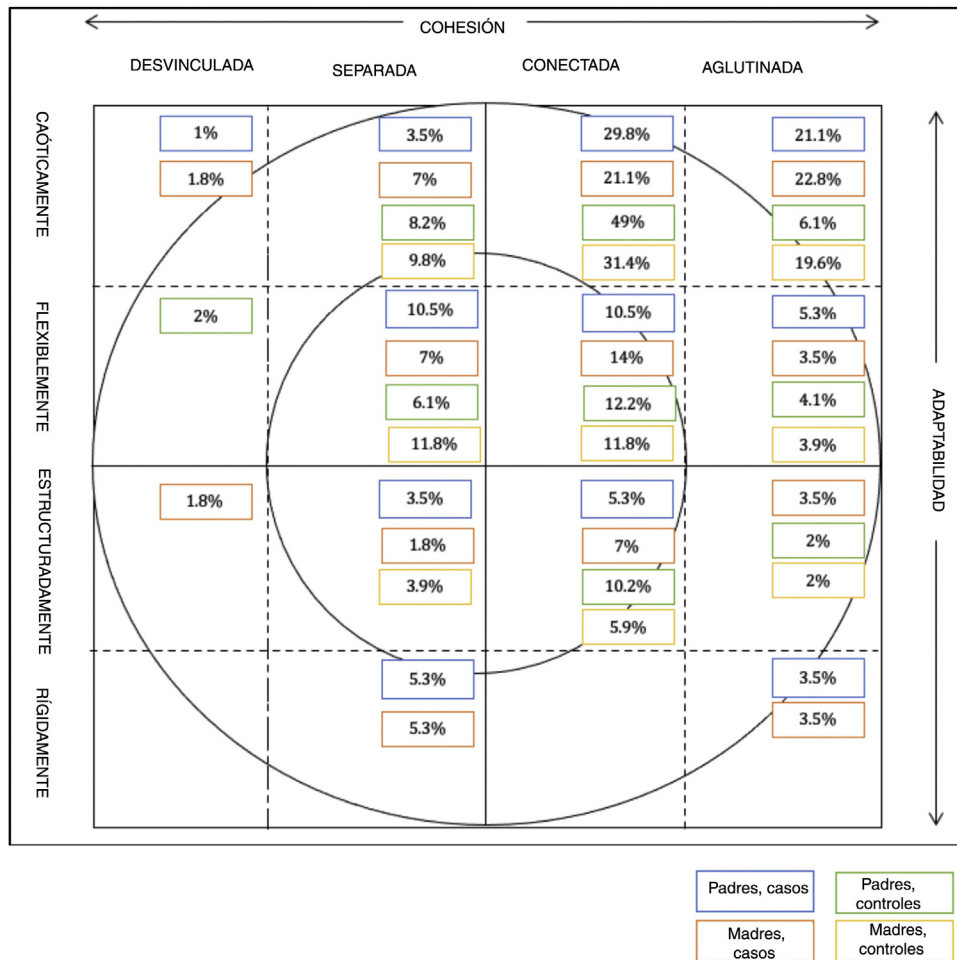


Figura 2 Tipos de dinámica familiar según el modelo circulejo de Olson.

Tabla 10 Distribución de frecuencias de los tres tipos de familia

Sistema familiar	Grupo de casos				Grupo control			
	Padres (n = 57)		Madres (n = 57)		Padres (n = 49)		Madres (n = 51)	
	n	%	n	%	n	%	n	%
Equilibrado	17	29,8	17	28,1	14	28,5	17	33,4
Moderado	25	43,9	24	42,2	32	65,3	24	47,1
Extremo	15	26,4	16	28,1	3	6,1	10	19,6

ción. Este hallazgo también difería de los resultados de un estudio previo¹³, centrado específicamente en el impacto de estas situaciones sobre la cohesión de las parejas, ya que a menudo se ven obligadas a poner toda su atención en el niño y los miembros de la pareja pueden descuidarse mutuamente. Una posible explicación de esta discrepancia es que las relaciones de las parejas en nuestro estudio pasaban por un buen momento, dado que se encontraban ampliando sus familias. Esto implica un cierto grado de armonía y una percepción idealizada de la relación, que podrían mantenerse intactos a pesar del diagnóstico recibido.

En ambos grupos, los progenitores percibían estilos moderados de dinámica familiar. Aplicando el modelo circulejo de Olson, las dinámicas familiares de las parejas se considerarían moderadas o extremas, ya que los participantes a menudo se clasificaron en las tipologías caóticamente conectada o caóticamente aglutinada. De este análisis se deduce que estas parejas que esperaban un hijo tenían una percepción muy positiva de su propia adaptabilidad y su cohesión familiar en el período prenatal. En otras palabras, consideraban que estaban dispuestos y eran capaces de adaptarse a cualquier cambio que pudiera ocurrir en su familia o círculo social. Además, la mayoría de las parejas

se encontraban en un momento de sus vidas en el que los intereses y objetivos de cada miembro se complementaban con los del otro.

De este modo, nuestros hallazgos confirmaron algunas de nuestras hipótesis iniciales. Por ejemplo, hubo diferencias significativas según el sexo tanto en el grupo de casos como en el grupo control, y hubo diferencias entre los grupos en el nivel global de malestar psicológico. En lo concerniente al ajuste diádico, solo hubo diferencias significativas entre las madres y padres del grupo control, sin diferencias entre los grupos. Los resultados no confirmaron la hipótesis inicial sobre la dinámica familiar.

Hemos de subrayar que cada persona afronta y acepta el diagnóstico de una enfermedad grave en un hijo de manera diferente, mediante distintos procesos y mecanismos. Dado que las familias bajo estudio se encontraban en la fase inicial tras recibir el diagnóstico, sería de gran interés observar los cambios en su percepción de la enfermedad y en su malestar psicológico, ajuste diádico y dinámica familiar. Estas familias apenas han comenzado un proceso que va a ser altamente complejo, en el que sus hijos van a ser ingresados, separándose de su familia, y sometidos a una o más intervenciones quirúrgicas de alto riesgo que pueden tener un impacto variable sobre su evolución. Estas parejas todavía no son del todo conscientes de esas circunstancias. Por lo tanto, es importante que las parejas que esperan un hijo y han recibido un diagnóstico prenatal de CC reciban consejo y acompañamiento psicológico efectivos para ayudarles a comprender la información provista y los procesos por los que es probable que pasen junto con su hijo en los primeros días, semanas y meses de vida. Esto puede ayudarles a afrontar los momentos críticos que irán atravesando a lo largo del tiempo y a sobrellevar la situación lo mejor posible como individuos, parejas y familias.

Otro hallazgo importante es que, en el momento de recibir el diagnóstico, todas las parejas decidieron continuar con el embarazo a pesar de saber que el niño iba a padecer una enfermedad crónica. El hecho de que fueran capaces de aceptar la enfermedad sugiere que estas parejas tienen fortalezas y habilidades que podrán ayudarles a conseguir un equilibrio estable como individuos, parejas y familias según vaya evolucionando la enfermedad. Estas habilidades pueden ser una fortaleza en el momento de afrontar tanto la transición a la paternidad como el diagnóstico de CC en el niño⁸.

Los resultados de los cuestionarios administrados ilustran en líneas generales el impacto del diagnóstico prenatal de CC en la familia. Estos hallazgos pueden ser de interés para los profesionales que deseen ofrecer apoyo psicológico y asesoramiento efectivos a los padres. A su vez, ello puede ayudar a los padres que se encuentran en estas situaciones a entender y aceptar la información que reciben y a mejorar sus habilidades de afrontamiento, su manejo de las experiencias asociadas a la enfermedad y su calidad de vida.

Los datos obtenidos también permitirán realizar un seguimiento de la evolución de los participantes según el pronóstico de la enfermedad en sus hijos, y formular otras preguntas para la investigación futura y para el desarrollo de estrategias de prevención y tratamiento.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Moreno F. Capítulo 2. Epidemiología de las cardiopatías congénitas. Madrid: Asociación Española de Pediatría; 2019. p. 17–29.
2. Vander Linde D, Konings EEM, Slager MA, Witsenburg M, Helbing WA, Takkenberg JJM, et al. Birth prevalence of congenital heart disease worldwide. A systematic review and meta-analysis. *J Am Coll Cardiol*. 2011;58:2241–7.
3. Llurba E, Sánchez O, Ferrer Q, Nicolaidis KH, Ruiz A, Domínguez C, et al. Maternal and foetal angiogenic imbalance in congenital heart defects. *Eur Heart J*. 2014;35:701–7.
4. Best KE, Rankin J. Long-term survival of individuals born with congenital heart disease: A systematic review and meta-analysis. *J Am Heart Assoc*. 2016;5, e002846.
5. Kovalchin JP, Silverman NH. The impact of fetal echocardiography. *Pediatr Cardiol*. 2004;25:299–306.
6. Santos de Sato. Manual para padres de niños con cardiopatía congénita. Sevilla: Técnica y comunicación; 2006.
7. Jones S, Statham H, Solomou W. When expectant mothers know their baby has a fetal abnormality: Exploring a crisis of motherhood through qualitative data-mining. *J Soc Work Res Evaluation*. 2005;62:195–206.
8. Ross LE, McLean LM. Anxiety disorder during pregnancy and the postpartum period: A systematic review. *J Clin Psychiatry*. 2006;67:1285–98.
9. Fonseca A, Nazaré B, Canavarró MC. Parental psychological distress and quality of life after a prenatal or postnatal diagnosis of congenital anomaly: A controlled comparison study with parents of healthy infants. *Disabil Health J*. 2012;5:67–74.
10. Cano S. Anàlisi de les vivències i el grau de satisfacció dels pares de nadons hospitalitzats a la UCIN de l'Hospital Universitari Arnau de Vilanova de Lleida. Criteris per a una atenció neonatal centrada en el desenvolupament i la família. 2011.
11. Fonseca A, Nazaré B, Canavarró MC. Patterns of parental emotional reactions after a pre- or postnatal diagnosis of a congenital anomaly. *J Reprod Infant Psychol*. 2011;29:320–33.
12. Rubio B, García J, Monzón J, Herreros O, Gastaminza X. Capítulo 1.2. La familia ante la enfermedad. A: Paidopsiquiatría Psicosomática: La interconsulta y la psiquiatría de enlace en pediatría. Madrid; 2014. p. 24–32.
13. Estrada P. Cómo se afecta el funcionamiento de la familia de un niño con cardiopatía congénita. *Revista de la Facultad de Trabajo Social*. 2006;22:128–37.
14. Sanz M, Fernandez P, Rodriguez A. Repercusión familiar sobre el deseo concepcional de los padres con hijos afectados de formas clásicas de hiperplasia suprarrenal congénita por déficit de 21-hidroxilasa. *Rev Esp Endocrinol Pediatr*. 2018;9:14–20.
15. Grau C. Percepciones de los padres de niños enfermos de cáncer sobre los cambios en las relaciones familiares. *Psicooncología*. 2012;9:125–36.
16. Giné C. El paper de la família i l'entorn microcultural en els processos d'integració. *Educació*. 1998;22-23:119–37.
17. Saz MA. Impacto de la enfermedad oncológica infantil: Percepción de las familias y de las enfermeras [tesis]. Barcelona: Universidad de Barcelona; 2018.
18. ontaura FC, Cardoso MVLML, Rodrigues SE, Almeida PC, Carvalho LB. Anxiety of mothers of newborns with congenital malformations in the pre-and postnatal periods. *Rev LatAm Enfermagem*. 2018;26:e3080.
19. Donofrio MT, Moon-Grady AJ, Hornberger LK, Copel JA, Sklansky MS, Abuhamad A. Diagnosis and treatment of fetal cardiac disease. *Circulation*. 2014;129:2183–242.

20. Woolf-King S, Anger A, Arnold E, Weiss S, Teitel D. Mental health among parents of children with critical congenital heart defects: A systematic review. *J Am Heart Assoc.* 2017;6:e004862.
21. Ortigosa JM, Méndez FX. Hospitalización infantil: Repercusiones psicológicas. Madrid: Biblioteca Nueva; 2000.
22. Fernando L, Arrigo B. Cardiopatías congénitas. Incidencia post-natal. *Rev Chil Obstet Ginecol.* 2002;67:207–10.
23. Fernando L, Arrigo B. Cardiopatías congénitas. *Rev Chil Obstet Ginecol.* 2014;74:135–40.
24. Karla A, Díaz C, Cerrón C. Características epidemiológicas y clínicas de las cardiopatías congénitas en menores de 5 años del Hospital Almanzor Aguinaga Asenjo. Enero-Diciembre 2012. *Horiz Med.* 2015;15:49–56.
25. Jackson AC, Frydenberg E, Liang RP-T, Higgins RO, Murphy BM. Familial impact and coping with child heart disease: A systematic review. *Pediatr Cardiol.* 2015;36:695–712.
26. Páramo L, Mas R, Caverio C, Martos C, Zurriaga O, Barona C. A corazón abierto: vivencias de madres y padres de menores con anomalías congénitas cardíacas. *Gac Sanit.* 2015;29:445–50.
27. Egea B, García C, Núñez JP, Visedo P, Pitillas C. Validación de una versión reducida del Cuestionario Estilos de Respuesta Parental (CERP-R) frente a la enfermedad de un hijo. *Enferm Oncologica.* 2020;22:47–55.
28. Derogatis L. Manual: Inventario breve de 18 síntomas. Madrid: Pearson; 2013.
29. Santos-Iglesias P, Vallejo-Medina P, Sierra JC. Propiedades psicométricas de una versión breve de la Escala de Ajuste Diádico en muestras españolas. *Int J Clin Health Psychol.* 2009;9:501–17.
30. Spanier GB, Thomson L. A confirmatory analysis of the dyadic adjustment scale. *J Marriage Fam.* 1982;44:731–8.
31. Forjaz MJ, Cano PM, Cervera-Enguix S. Confirmatory factor analysis, reliability, and validity of a Spanish version of FACES-III. *Am J Fam Ther.* 2002;30:439–49.
32. Martínez A, Iraurgi I, Galíndez E, Sanz M. Family adaptability and cohesion evaluation scale (FACES): desarrollo de una versión de 20 ítems en español. *Int J Clin Health Psychol.* 2006;6:317–38.
33. Olson DH, Portner J, Lavee Y. Manual de la Escala de Cohesión y Adaptabilidad Familiar (FACES-III Manual). Minneapolis: Life Innovation; 1985.
34. Lumsden MR, Smith DM, Wittkowski A. Coping in parents of children with congenital heart disease: A systematic review and meta-synthesis. *J Child Fam Stud.* 2019;28:1736–53.