

УДК 616.151.514-053.2-071.1(079.5=83)

А.І. Маркін

Конструктивна валідність української версії запитальника HAEMO-QoL

Львівський національний медичний університет імені Данила Галицького, Україна

SOVREMENNAYA PEDIATRIYA.2018.5(93):26-32; doi 10.15574/SP.2018.93.26

Описано процедуру та результати дослідження конструктивної валідності (КВ) української версії запитувальника Haemo-QoL.

Мета: дослідити КВ української версії запитальника Haemo-QoL для оцінки якості життя, пов'язаної зі здоров'ям (ЯЖПЗЗ), дітей з гемофілією.

Матеріали і методи. Проаналізовано дані обстеження 106 респондентів-учасників дослідження (53 дітей, хворих на гемофілію А, та 53 їхніх батьків) кореспондентським методом. Анкетування проводилось з використанням пілоотної української версії запитальника Haemo-QoL у формі індивідуального та електронного інтерв'ювання. Визначено показники інтенсивності суглобового болю з використанням візуальної аналогової шкали інтенсивності болі Вонга—Бейкера (ВАШБ) у 53 пацієнтів, хворих на гемофілію А. Конструктивна валідність запитальника визначалася з використанням наступних методів: методу «відомих груп», аналізу кореляційних зв'язків у межах структури запитальника та за зовнішніми критеріями.

Результати. Встановлено, що ЯЖПЗЗ є найгіршою у пацієнтів із важкою формою гемофілії А і найкращою при легкій формі захворювання; батьки оцінюють ЯЖПЗЗ гірше, ніж діти. ЯЖПЗЗ достовірно погіршується зі збільшенням кількості крововиливів у суглоби; показники шкали «Фізичне здоров'я» достовірно корелюють з показниками ВАШБ. Найбільші коефіцієнти кореляції виявлено між змістовно подібними шкалами «Фізичне здоров'я» та «Спорт і школа», які найменше корелюють зі шкалами соціального функціонування.

Висновки. Пілотна українська версія запитальника Haemo-QoL має достатню КВ для використання її у вітчизняній практичній та теоретичній медицині як інструмента оцінки ЯЖПЗЗ у пацієнтів з гемофілією А та їхніх батьків.

Ключові слова: гемофілія А, діти, валідація запитальника, якість життя, валідність.

Construct validity of the Ukrainian version of Haemo-QoL questionnaire

A.I. Markin

Danylo Halytsky Lviv National Medical University, Ukraine

The article describes the procedure and study outcomes of the construct validity of the Ukrainian version of Haemo-QoL questionnaire.

Objective: to investigate the construct validity (CV) of the Ukrainian version of the questionnaire for assessing the health-related quality of life (HR-QoL) of children with haemophilia.

Materials and methods. The survey data of 106 respondents-participants (53 children with haemophilia A and 53 their parents) were analysed by the correspondent method. The questionnaire survey was conducted using the pilot Ukrainian version of Haemo-QoL Questionnaire via individual and electronic interviewing. For assessing of joint pain intensity, the Wong-Baker Faces Pain Rating Scale (FPS) in 53 patients with haemophilia A was used. The construct validity (CV) assessment of questionnaire was conducted using the following methods: known-groups technique, correlation relationship analysis within the questionnaire structure and using «external criteria».

Results. It was found that the worst HR-QoL was in the group of patients with severe course of haemophilia A, and the best one was admitted in mild course of the disease; HRQoL evaluated by parents was lower than by their children. HRQoL significantly deteriorated with increase in the number of haemarthrosis; the indicators of the «Physical Health» scale reliably correlated with the FPS indicators. The highest correlation coefficients were found between the content-like scales: Physical Health and Sport & School, which are the least correlated with the social functioning scales.

Conclusions. The pilot Ukrainian version of Haemo-QoL Questionnaire has sufficient CV for its use in the national practical and theoretical medicine as a HRQoL assessment instrument in haemophilic patients and their parents.

Key words: haemophilia A, children, validation of questionnaire, quality of life, validity.

Конструктивная валидность украинской версии опросника Haemo-QoL

А.І. Маркін

Львовский национальный медицинский университет имени Данила Галицкого, Украина

Описаны процедура и результаты исследования конструктивной валидности (КВ) украинской версии опросника Haemo-QoL.

Цель: исследовать КВ украинской версии опросника Haemo-QoL для оценки качества жизни, связанного со здоровьем (КЖСсЗ), больных гемофилией детей.

Материалы и методы. Проанализированы данные обследования 106 респондентов-участников исследования (53 больных гемофилией А детей и 53 их родителей) корреспондентским методом. Анкетирование проводилось с использованием пилотной украинской версии опросника Haemo-QoL в форме индивидуального и электронного интервьюирования. Определены показатели интенсивности суставной боли с использованием визуальной аналоговой шкалы интенсивности боли Вонга—Бейкера (ВАШИБ) у 53 пациентов с гемофилией А. Конструктивная валидность опросника определялась с использованием следующих методов: метода «известных групп», анализа корреляционных связей в пределах структуры опросника и по «внешним критериям».

Результаты. Установлено, что КЖСсЗ является наихудшим у пациентов с тяжелой формой гемофилии А и лучшим при легкой форме гемофилии; родители оценивают КЖСсЗ хуже своих детей. КЖСсЗ достоверно ухудшается с увеличением количества кровоизлияний в суставы; показатели шкалы «Физическое здоровье» достоверно коррелируют с показателями ВАШИБ. Наибольшие коэффициенты корреляции определены между содержательно подобными шкалами: «Физическое здоровье» и «Спорт и школа», которые меньше коррелируют со шкалами социального функционирования.

Выводы. Пилотная украинская версия опросника Haemo-QoL обладает достаточной КВ для использования ее в практической и теоретической медицине в качестве инструмента оценки КЖСсЗ у пациентов с гемофилией А и их родителей в Украине.

Ключевые слова: гемофилия А, дети, валидация опросника, качество жизни, валидность.

Вступ

У світовій медичній практиці розроблено та впроваджено декілька запитальників для оцінки якості життя, пов'язаної зі здоров'ям (ЯЖПЗЗ) дітей з гемофілією. За даними аналізу літератури, найбільш дослідженим та апробованим є запитальник Haemo-QoL

[9,10,17,19,23,28,30,31]. На сьогодні валідованої української версії даного запитальника немає [2,12]. Соціокультурна та лінгвістична адаптація української тест-версії даного запитальника описана в окремому дослідженні [3]. Однак мовна та концептуальна еквівалентність тест-версії оригіналу не може гарантувати

загальну придатність запитальника відображає результативну оцінку його цільової функції у новому етнолінгвістичному середовищі [2]. Відтак для його легітимного застосування у практичній та теоретичній медицині необхідне проведення комплексного психометричного аналізу даного запитальника з визначенням відповідних характеристик. Згідно з міжнародними рекомендаціями, аналіз психометричних характеристик (ПХ) інструментів для оцінки якості життя (ОЯЖ) є необхідним та безальтернативним етапом як створення нового інструмента, так і адаптації вже існуючого до умов нового етнолінгвістичного середовища [8,11,15,18,31]. Водночас слід зазначити, що сьогодні немає єдиного сформованого алгоритмічного підходу до процесу проведення психометричного аналізу запитальників, вимог щодо застосування чітко визначених методів такого аналізу. Незважаючи на це, в абсолютній більшості керівництв та рекомендацій щодо проведення крос-культурної адаптації інструментів ОЯЖ під психометричним аналізом розуміють дослідження трьох основних ПХ: валідності, надійності та сприйнятності [2,4,8,11,15,18,31].

Задовільні ПХ дають змогу визнати запитальник валідованим, тобто допустимим для застосування в практичних та теоретичних галузях. Для уникнення плутанини термінів важливо зауважити, що терміни «валідність» та «валідація», як і їх семантичні похідні, у літературі вживаються у двох різних змістово-специфічних значеннях. Терміни «валідація», або «валідований запитальник» чи «валідована версія», застосовуються у контексті загальної характеристики запитальника, що визначає та характеризує його придатність до застосування, тобто його легітимність. У такому значенні запитальник вважається апріорно адаптованим, маючи задовільні ПХ. Термін «валідність» застосовується у контексті однієї з ПХ конкретного інструмента, яка відображає здатність даного інструмента достовірно виконувати ту основну функцію, яку він повинен виконувати, однак без підтвердження здатності достовірного відображення даної цільової функції у динаміці при змінності чи незмінності клінічних характеристик захворювання. У даній публікації описана процедура дослідження валідності як однієї з характеристик психометричного аналізу.

Існує ряд методів визначення валідності запитальників, але загалом, за твердженням А.А. Новик, «дослідження кожного з них наці-

лено на виконання одного і того ж завдання — оцінка достовірності показників шкал опитувальника» [4]. Прийнято виділяти чотири основні види валідності: зовнішню (в англійській літературі «face validity»), змістову («content validity»), критеріальну («criterion validity») та конструктивну (КВ) («construct validity») [4,6,25]. Вивчення зовнішньої та змістової валідності нами проведено в окремому дослідженні. Критеріальну валідність розділяють на два основні типи: поточну (ПоВ) та прогностичну (ПрВ). ПоВ, як і змістова валідність, переважно використовується при створенні нового запитальника. Її дослідження передбачає паралельне використання іншого інструмента ОЯЖ, так званого «золотого стандарту», з доведеною раніше валідністю в даній групі респондентів. На жаль, нами не знайдено українських версій інших запитальників із доведеною валідністю у групі пацієнтів, хворих на гемофілію, що зумовлює неможливість визначення ПоВ на даний час. ПрВ визначає, наскільки прогностично значущою може бути поточна оцінка показників якості життя (ЯЖ) у перспективному перебігу захворювання, тобто вона залишається не доведеною до настання певного часового проміжку. Водночас ПрВ не може бути мірою критичного визначення валідності адаптованого інструмента при задовільних показниках змістової на КВ, на відміну від створення нового запитальника. Враховуючи це, а також беручи до уваги відсутність необхідності застосовувати ПрВ в адаптаційних процесах, ми не вважаємо за необхідне проводити дану оцінку.

Конструктивна валідність характеризує, наскільки достовірно структура запитальника здатна виміряти ту основну характеристику, яку він повинен визначати [4], та, за вдалим висловом О.А. Volapinwa, «КВ не має критеріїв для порівняння, а лишень використовує гіпотетичні конструкції» [6]. Відповідно, визначається КВ шляхом висування гіпотез та їхньої статистичної перевірки у дослідженні [1]. Серед методів оцінки КВ розрізняють метод «відомих груп», факторний аналіз, оцінку кореляційного зв'язку із «зовнішніми критеріями», тестування гіпотез та ряд інших [6]. В існуючих сьогодні рекомендаціях немає чітких вимог щодо вибору методики перевірки КВ, що зумовило різні підходи та обсяги її визначення у різних дослідженнях [1,4].

Мета роботи: дослідити КВ української повної версії запитальника для оцінки ЯЖПзЗ

дітей з гемофілією Наето-QoL та визначити придатність до застосування даної версії запитальника за характеристикою KB.

Матеріал і методи дослідження

Для ОЯЖ застосовано етнолінгвістично адаптовану повну українську версію запитальника Наето-QoL [3]. Використано шість версій даного запитальника: три версії запитальника (з урахуванням вікових груп обстежених) для дітей: версія Ід – для дітей віком 4–7 років, Ід – 8–12 років, ІІд – 13–16 років; три аналогічні версії запитальника для батьків дітей відповідних вікових груп (Іб, ІІб, ІІІб). Структурне навантаження запитальника становлять для версії Ід/б – 8 шкал / 21 запитання, Ід/б – 10 шкал / 64 запитання, ІІд/б – 12 шкал / 77 запитань: шкала «Фізичне здоров'я» (ФЗ), «Самопочуття» (СП), «Самооцінка» (СО), «Сім'я» (С), «Друзі» (Д), «Підтримка оточуючих» (ПО), «Інші люди» (ІЛ), «Спорт та школа» (СШ), «Життя з гемофілією» (ЖГ), «Лікування» (Л), «Майбутнє» (М), «Відноси-

ни» (В). Кількість запитань у шкалах варіює від 2-х до 10-и. Для оцінки інтенсивності суглобового болю використано модифіковану 5-бальну візуальну аналогову шкалу інтенсивності болю Вонга–Бейкера (ВАШБ). Проведено аналіз медичних карт стаціонарного хворого.

Дослідження проводилося на базі Центру тромбозу та гемостазу у дітей КЗ ЛОР «Західноукраїнський спеціалізований дитячий медичний центр» (м. Львів). У дослідженні взяли участь 106 респондентів: 53 дитини, хворі на гемофілію А (27 дітей з важкою (ВГ), 18 із середньоважкою (СГ) та 8 із легкою формою гемофілії (ЛГ); усі діти – хлопчики; середній вік дітей становив 10 років (від 5 до 16 р.); а також 53 батьків відповідних дітей (42 матері, 11 батьків). Дане дослідження проводилося кореспондентським методом у формі індивідуального (84 респонденти, у тому числі усі респонденти групи І д/б) та електронного (22 респонденти) інтерв'ювання. Паралельно із заповненням бланків запитальника усі діти-респонденти заповнювали ВАШБ Вонга–

Таблиця 1

Показники ЯЖПЗ у дітей з гемофілією А та їхніх батьків в усіх вікових групах

Шкала	Група	N	Ступінь важкості гемофілії А			H
			TSS ЛГ (n=16)	TSS СГ (n=36)	TSS ВГ (n=54)	
ФЗ	Д	53	0,00 (0,00; 3,57)	30,36 (10,71; 53,57)	53,57 (39,29; 71,43)	23,39*
	Б	53	0,00 (0,00; 5,35)	30,36 (12,50; 50,00)	60,71 (43,75; 75,00)	27,87*
СП	Д	53	3,35 (0,00; 4,91)	18,30 (3,57; 31,25)	33,33 (17,86; 0,00)	16,77**
	Б	53	3,57 (0,00; 6,70)	17,86 (8,33; 34,38)	40,63 (21,43; 53,13)	23,19*
СО	Д	53	2,35 (0,00; 6,95)	25,00 (11,11; 30,00)	25,00 (13,89; 45,00)	14,63**
	Б	53	9,16 (6,53; 12,50)	25,00 (12,50; 44,44)	35,00 (25,00; 47,22)	14,73**
С	Д	53	13,75 (5,00; 20,00)	20,94 (6,25; 50,00)	62,50 (50,00; 75,00)	26,75*
	Б	53	12,50 (10,00; 32,50)	38,75 (18,75; 43,75)	65,63 (55,00; 75,00)	33,34*
Д	Д	53	0,00 (0,00; 12,50)	20,84 (7,29; 34,38)	50,00 (31,25; 62,50)	20,36**
	Б	53	9,38 (3,13; 18,75)	25,00 (12,50; 25,00)	50,00 (31,25; 62,50)	29,36*
ПО	Д	39	6,25 (0,00; 12,50)	25,00 (8,33; 56,25)	37,50 (37,50; 56,25)	13,88**
	Б	39	0,00 (0,00; 6,25)	25,00 (8,33; 43,75)	50,00 (31,25; 56,25)	16,36**
ІЛ	Д	53	0,00 (0,00; 2,08)	14,59 (0,00; 25,00)	25,00 (16,67; 37,50)	19,76**
	Б	53	2,08 (0,00; 8,33)	12,50 (4,17; 25,00)	37,50 (20,83; 50,00)	25,80*
СШ	Д	53	8,68 (2,96; 14,59)	35,25 (21,88; 50,00)	50,00 (43,75; 69,44)	25,73*
	Б	53	6,25 (5,56; 11,46)	37,50 (21,43; 50,00)	58,33 (47,22; 69,44)	27,50*
ЖГ	Д	39	6,07 (3,57; 17,86)	17,86 (14,29; 28,57)	42,86 (32,14; 53,57)	17,06**
	Б	39	10,00 (5,00; 12,50)	21,43 (18,75; 25,00)	42,86 (32,14; 53,57)	27,40*
Л	Д	53	н/в	25,00 (15,63; 50,00)	50,00 (25,00; 57,14)	p=0,173 U=134
	Б	53	н/в	25,00 (15,63; 37,50)	50,00 (32,14; 57,14)	U=82,5**
М	Д	15	7,29 (6,25; 8,33)	12,50 (12,50; 40,63)	34,41 (31,32; 50,00)	7,55***
	Б	15	6,25 (6,25; 6,25)	18,75 (9,38; 31,25)	40,63 (28,16; 50,00)	8,05***
В	Д	15	0,00 (0,00; 0,00)	12,50 (0,00; 25,00)	31,25 (25,00; 62,50)	9,06***
	Б	15	0,00 (0,00; 0,00)	12,50 (0,00; 31,25)	50,00 (37,50; 75,00)	8,58***
зЯЖ	Д	53	5,66 (4,17; 8,48)	24,22 (18,75; 32,07)	43,35 (37,04; 52,18)	30,63*
	Б	53	7,65 (5,26; 11,59)	25,68 (17,24; 32,55)	48,22 (38,66; 55,99)	36,40*

Примітки: *p<0,00001; **p<0,001; ***p<0,05; U – U-критерій Мана–Вітні; N – загальна кількість обстежених; n – кількість обстежених з відповідною формою гемофілії А; H – H-критерій Крускала–Волліса; н/в – TSS не визначалася, Д – діти, Б – батьки, зЯЖ – загальна ЯЖПЗ.

Бейкера. Усі учасники дослідження вільно володіли українською мовою, були детально поінформовані про мету та хід дослідження.

Дослідження виконані відповідно до принципів Гельсінської Декларації. Протокол дослідження ухвалений Локальним етичним комітетом (ЛЕК) всіх зазначених у роботі установ. На проведення досліджень було отримано поінформовану згоду респондентів.

Конструктивна валідність оцінювалась методами «відомих груп», аналізу кореляційних зв'язків у межах структури запитальника та аналізу кореляцій шкал запитальника із «зовнішніми критеріями». Для оцінки методом «відомих груп» пацієнтів було розподілено на три групи залежно від форми захворювання: ЛГ, СГ та ВГ. Респондентів із СГ та ВГ поділено на дві групи — діти та батьки. Враховуючи результати досліджень залежності показників ЯЖПзЗ від форми захворювання, проведених у інших країнах [5,9,21,22,29], було зроблено наступні припущення:

1. ЯЖПзЗ пацієнтів з гемофілією погіршується відповідно до ступеня важкості захворювання: найгірша ЯЖПзЗ у пацієнтів з ВГ, найкраща — у пацієнтів з ЛГ.

2. ЯЖПзЗ за оцінкою дітей краща, ніж за оцінкою їхніх батьків.

При аналізі кореляційних зв'язків у межах структури запитальника припущено, що, по-перше, сумарні показники ЯЖПзЗ схожих шкал корелюють між собою більше, ніж з іншими шкалами. Зокрема шкала «ФЗ» та шкала «СШ» оцінюють фізичну активність пацієнтів та є взаємопов'язаними в наступному контексті: погіршення фізичного стану впливає на фізичну активність у школі та заняття спортом та повинні корелювати між собою сильніше за інші шкали запитальника, зокрема шкали, які належать до соціального функціонування; бали відповіді на запитання «Як твоє загальне здоров'я?» та «Наскільки сильно тебе/Вас турбує гемофілія/Вашої дитини?» корелюють зі загальним показником ЯЖПзЗ.

При проведенні кореляційного аналізу за «зовнішніми критеріями» у якості зовнішніх критеріїв обрано кількість крововиливів у суглоби за останній місяць та ВАШБ. Пацієнтів розподілено на три групи: група I — не було крововиливів у суглоби, II — 1 крововилив, III — ≥ 2 крововиливів у суглоби. ВАШБ заповнювали усі діти з гемофілією. Виходячи з цього та із відомих досліджень [5,7,14,22,24,25,27,29], припускаємо наступне:

по-перше, зі збільшенням кількості крововиливів погіршується загальний показник ЯЖПзЗ, з максимально достовірною кореляційною залежністю зі шкалами «ФЗ» та «СШ»; по-друге, показники ВАШБ корелюють із показниками шкали «ФЗ».

Показники ЯЖПзЗ за відповідною шкалою представлені у вигляді «transmuted scale score» (TSS) відповідно до відомої формули [16], причому вищі показники TSS свідчать про гіршу ЯЖ, а нижчі — про кращу, з інтервалом допустимих значень від «0» до «100» балів (де «0» — максимально хороша ЯЖ, а «100» — максимально погана ЯЖ). Така трансформація необхідна для можливості порівняння шкал запитальників із різною кількістю запитань та, відповідно, загальним балом. Загальна ЯЖПзЗ для кожного респондента визначена як середнє балів (TSS) усіх шкал запитальника. У дослідження включені дані шкал/запитальників з кількістю відповідей на пункти $\geq 50\%$.

Відповіді на запитання шкали «Загальне здоров'я» (ЗЗ), та бали, отримані при аналізі відповідей на додаткове запитання «Наскільки сильно тебе/Вас турбує гемофілія/Вашої дитини?», трансформовані у відсоткову шкалу від 0 до 100% за відомою формулою [16], де результат 0% — ЗЗ максимально хороше/зовсім не турбує, 100% — ЗЗ максимально погане/дуже сильно турбує.

Для статистичного дослідження попередньо було проведено аналіз груп на нормальність розподілу, використовуючи аналіз ексцесу та асиметрії, тести Колгоморова—Смірнова та Шапіро—Вілка, а також аналіз гістограм та нормограм розподілу. З огляду на те, що більшість показників за характеристикою розподілу відрізнялися від нормального, результати дослідження представлені у вигляді Me (25%;75%) де Me — медіана, 25% — перший квартиль (25-й процентиль), 75% — третій квартиль (75-й процентиль). Для проведення кореляційного аналізу використовували коефіцієнт кореляції Пірсона та ранговий коефіцієнт кореляції Спірмена, Н-критерій Крускала—Уолліса, U-критерій Мана—Вітні. Значення $p < 0,05$ характеризувалося як статистично достовірна різниця. Для статистичного аналізу отриманих даних було використано програмне забезпечення SofaStat v.1.4.6 [20].

Результати дослідження та їх обговорення

Дослідження KB методом «відомих груп». Узагальнені дані показників ЯЖПзЗ у дітей та їхніх батьків наведені у табл. 1.

Таблиця 2

Коефіцієнти кореляції між TSS шкал запитальника для усіх обстежених із середньоважкою та важкою формою гемофілії

	ФЗ	СП	СО	С	Д	ПО	ІЛ	СШ	ЖГ	Л	М	В
ФЗ	1.000	0,801**	0,681**	0,658**	0,593**	0,566**	0,748**	0,822**	0,675**	0,248*	0,797**	0,810**
СП	0,801**	1.000	0,755**	0,560**	0,581**	0,573**	0,756**	0,743**	0,609**	0,235*	0,616**	0,506**
СО	0,681**	0,755**	1.000	0,533**	0,489**	0,540**	0,633**	0,717**	0,504**	0,175	0,516**	0,658**
С	0,658**	0,560**	0,533**	1.000	0,679**	0,576**	0,602**	0,680**	0,655**	0,368**	0,596**	0,788**
Д	0,593**	0,581**	0,489**	0,679**	1.000	0,600**	0,619**	0,558**	0,691**	0,482**	0,767**	0,785**
ПО	0,566**	0,573**	0,540**	0,576**	0,600**	1.000	0,572**	0,594**	0,498**	0,363**	0,761**	0,717**
ІЛ	0,748**	0,756**	0,633**	0,602**	0,619**	0,572**	1.000	0,677**	0,630**	0,279*	0,778**	0,566**
СШ	0,822**	0,743**	0,717**	0,680**	0,558**	0,594**	0,677**	1.000	0,692**	0,259*	0,664**	0,688**
ЖГ	0,675**	0,609**	0,504**	0,655**	0,691**	0,498**	0,630**	0,692**	1.000	0,534**	0,741**	0,706**
Л	0,248*	0,235*	0,175	0,368**	0,482**	0,363**	0,279*	0,259*	0,534**	1.000	0,577**	0,614**
М	0,797**	0,616**	0,516**	0,596**	0,767**	0,761**	0,778**	0,664**	0,741**	0,577**	1.000	0,709**
В	0,810**	0,506**	0,658**	0,788**	0,785**	0,717**	0,566**	0,688**	0,706**	0,614**	0,709**	1.000

Примітка: * – достовірний коефіцієнт кореляції ($p < 0,05$), ** – достовірний коефіцієнт кореляції ($p < 0,01$).

З наведених даних очевидно, що загальна ЯЖПзЗ має виразну залежність від форми важкості захворювання у дітей з гемофілією А в Україні наступним чином: найвищі показники, та відповідно, найгіршу ЯЖ виявлено у пацієнтів із ВГ, а найнижчі показники – у пацієнтів із ЛГ, і ця різниця була статистично достовірною ($p < 0,00001$, $N=30,63$). Аналогічні дані, які були також статистично достовірними, отримані і при аналізі загальної ЯЖПзЗ у батьків. Такі результати подібні до результатів інших дослідників, які демонструють залежність ЯЖПзЗ від важкості гемофілії в інших країнах [13,17,19,22].

При аналізі показників TSS окремих шкал запитальника виявлено, що найгіршою ЯЖПзЗ була у пацієнтів з ВГ, а найкращою – при ЛГ, і така різниця була статистично достовірною для усіх шкал, за винятком шкали «Л» у дітей, у дітей та батьків при значенні Н-критерію від 7,55 у шкалі «М» у дітей до 33,34 у шкалі «С» у батьків. У шкалі «Л» дані представлені лише у пацієнтів із СГ та ВГ через відсутність достатньої для аналізу кількості відповідей пацієнтів із ЛГ. Слід також зазначити, що попри відсутність статистично достовірної різниці у показниках ЯЖПзЗ у дітей з СГ та ВГ для шкали «Л» ($p=0,173$, $U=134$), медіана показників TSS при ВГ є більшою за СГ рівно вдвічі, а середні TSS у пацієнтів із ВГ склали 43,37 ($\pm 24,2$), тоді коли для СГ – 31,89 ($\pm 24,1$), і такі дані можна розцінити як наявну різницю ЯЖПзЗ між СГ та ВГ. Однак для статистично достовірного обґрунтування таких висновків, ймовірно, необхідне проведення подібного порівняння у майбутньому з більшою вибіркою пацієнтів та з огляду на метод і режим лікування, які не враховані в даному дослідженні. З обережні-

стю слід також ставитися до отриманих даних різниці TSS у респондентів за шкалами «М» та «В» через малу кількість респондентів із ЛГ (2 дітей та 2 батьків), навіть враховуючи статистично достовірну різницю між TSS як у батьків, так і дітей ($p < 0,05$).

Оцінюючи різницю між загальною оцінкою ЯЖПзЗ у батьків та дітей без диференціювання на групи за важкістю захворювання, ми встановили, що батьки оцінюють ЯЖПзЗ своїх дітей дещо гірше, ніж діти, з рівнем TSS 34,38 (22,19; 47,70) у батьків та 32,55 (21,71; 43,35) у дітей. Однак ця різниця не була статистично достовірною ($p=0,498$ при U Мана–Вітні 1845,5). Одночасно дещо гірші показники ЯЖПзЗ у батьків виявлені як при порівнянні у респондентів із СГ, так і з ВГ окремо. Слід зазначити, що отримані нами дані подібні до даних досліджень інших авторів, які продемонстрували переважно гірші показники оцінки ЯЖПзЗ батьками [10,32].

Дослідження КВ методом порівняння зі «зовнішніми критеріями». Між показником кількості крововиливів та загальної ЯЖПзЗ виявлено достовірний сильний позитивний зв'язок ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,778). Тобто встановлено, що при збільшенні кількості крововиливів у суглоби існує тенденція до погіршення ЯЖПзЗ. При даному порівнянні ми не диференціювали крововиливи за клінічною важкістю та їх локалізацією, а пацієнтів – за формами важкості захворювання, оскільки основним завданням було підтвердження гіпотетичної конструкції відомих досліджень щодо залежності показників ЯЖПзЗ та крововиливів у суглоби та характеристики ступеня валідності запитальника за цим критерієм. Також встановлено, що показники TSS шкал

«ФЗ» та «СШ» зростають при збільшенні кількості крововиливів, і такий зв'язок був достовірний сильний позитивний ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,807 та $p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,73 відповідно). Аналіз кореляційного зв'язку показників даних шкал зі «зовнішніми критеріями» проведений з урахуванням їх змістового навантаження (більшість запитань у цих шкалах стосуються фізичної активності та суб'єктивної оцінки ураження суглобів).

Між показниками оцінки інтенсивності суглобового болю, отриманими з використанням ВАШБ Вонга—Бейкера та TSS «ФЗ» у загальній групі обстежених без диференціювання за віком та формою захворювання виявлено достовірний сильний позитивний зв'язок ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,912). Тобто при більшому значенні показника ВАШБ існує тенденція до наявності більшого значення TSS, що характеризує погіршення ЯЖПзЗ у компоненті ФЗ при зростанні інтенсивності суглобового болю. Порівняння показників ВАШБ із показниками TSS інших шкал не проводилося через різну змістову структуру, що унеможливує побудову відповідної гіпотетичної конструкції для характеристики КВ.

Дослідження КВ методом аналізу кореляційних зв'язків у межах структури запитальника. Нами встановлено зв'язок між загальною ЯЖПзЗ дітей із СГ та ТГ та їхніх батьків. При даному порівнянні виявлено достовірний сильний позитивний зв'язок ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,93). Тобто при погіршенні ЯЖПзЗ у дитини, хворої на гемофілію, також погіршується ЯЖПзЗ за оцінкою її батьків. У даному випадку ми проводили парні порівняння у конкретного пацієнта та його батьків (одного з батьків). Також нами проведено порівняння загальної ЯЖПзЗ за додатковими запитаннями запитальника, які формують окрему шкалу. Порівняння TSS «ЗЗ» та загальну ЯЖПзЗ у пацієнтів з СГ та ВГ виявило достовірний прямий помірний зв'язок ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,53). Тобто за наявності більшого значення показника TSS «ЗЗ», що характеризує погіршення суб'єктивного відчуття власного здоров'я, погіршується і ЯЖПзЗ у конкретної дитини. Між значенням TSS шкали «Наскільки сильно тебе/Вас турбує гемофілія/Вашої дитини?» та загальною ЯЖПзЗ у дітей із СГ та ВГ зв'язку не виявлено ($p = 0,113$, R Спірмена = 0,188), тоді як для батьків між цими показниками

існує достовірний прямий помірний зв'язок ($p = 0,0002$ при показнику R Спірмена 0,527). Таким чином, версії запитальника для батьків володіють достатньою валідністю за критерієм КВ з усіма проаналізованими додатковими показниками, тоді як у версіях для дітей валідність виявлена лише для шкали «ЗЗ». Слід наголосити, що ці порівняння проводилися на підставі побудованих гіпотетичних конструкцій, а відтак недостатня валідність окремих складових цієї конструкції не може характеризувати валідності запитальника загалом. Однак дає можливість рекомендувати при обстеженні ЯЖПзЗ з обережністю ставитися до оцінки дитиною того, наскільки сильно її турбує гемофілія, оскільки такі дані не мають достатньої кореляції із загальною ЯЖПзЗ.

Загальні дані кореляції між різними шкалами запитальника у пацієнтів із СГ і ВГ та їхніх батьків наведені у табл. 2.

При аналізі отриманих даних зв'язок встановлено між TSS для кожної шкали запитальника без диференціювання на групи за віком, формою захворювання. Також не було поділу на групи версій запитальника для батьків та дітей, виходячи з встановленого зв'язку між даними версіями ($p < 0,00001$ при показнику R Спірмена 0,93). Як видно з представлених даних, TSS шкали «ФЗ» має найбільший коефіцієнт кореляції із TSS шкал «СШ» (0,822, $p < 0,01$), «СП» (0,801, $p < 0,01$) та «В» (0,810, $p < 0,01$), з яких, беручи до уваги змістове навантаження відповідних шкал, показники «СШ» та «СП» є гіпотетично залежними від ФЗ. Водночас TSS «ФЗ» мають значно нижчі коефіцієнти кореляції зі шкалами, змістове навантаження яких стосується соціальних аспектів функціонування, зокрема «Д» (0,593, $p < 0,01$) та «ПО» (0,566, $p < 0,01$), а TSS шкали «Д» має найбільші значення коефіцієнта кореляції із показниками «М» та «В», і це також можна обґрунтувати гіпотетичним припущенням, що відносини з протилежною статтю та дружні відносини мають суміжну соціально-психологічну основу, а відповідно й сприйняття.

Таким чином, отримані результати дослідження з використанням методів «відомих груп», кореляційного аналізу зі «зовнішніми критеріями» та у межах структури запитальника дозволяють нам стверджувати, що структура української версії запитальника Наето-QoL може достовірно вимірювати ЯЖПзЗ у пацієнтів з гемофілією, що характеризує її задовільну КВ.

Висновки

Доведено, що новостворена пілотна українська версія запитальника Haemo-QoL володіє достатньою конструктивною валідністю для використання її у практичній та теоретичній

медицині в якості інструмента для оцінки ЯЖПзЗ у пацієнтів із гемофілією А та їхніх батьків в Україні.

Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів.

ЛІТЕРАТУРА

1. Криштопа БП, Огнев ВА, Лічман ЛЮ та ін. (2011). Адаптація опитувальника «Quality of Life in Childhood Epilepsy Questionnaire QOLCE: Parent Form» до національних умов. Україна. Здоров'я нації. 3 : 151—159.
2. Маркін АІ, Дубей ЛЯ, Комендант ХМ, Дубей НВ. (2017). Якість життя дітей з гемофілією А, пов'язана зі здоров'ям: міжнародний досвід та вітчизняні реалії. Перинатологія і педиатрія. 4 (72) : 125—133.
3. Маркін АІ, Дубей ЛЯ, Хмільярчук ЛІ. (2018). Українська версія запитальника Haemo-QoL: лінгвістична та соціокультурна адаптація. Современная педиатрия. 1(89) : 84—90.
4. Новик АА, Ионова ТИ. (2013). Исследование качества жизни в педиатрии. (2 изд., перераб. доп.). Москва : РАЕН. 136.
5. Bagheri S, Beheshtipoor N, Rambod M, Karimi M, Zare N, Hashemi F. (2013). The Quality of Life of children with Hemophilia in Shiraz, Iran. IJCBNM. 1(2): 110—120.
6. Bolarinwa OA. (2015). Principles and methods of validity and reliability testing of questionnaires used in social and health science researches. Nigerian Postgraduate Medical Journal. 22 (4): 195—201.
7. Brown TM, Lee WC, Joshi AV. (2009). Health-related quality of life and productivity impact in haemophiliapatient with inhibitors. Hemophilia. 15(4): 911—917.
8. Bullinger M, Quitmann J. (2014). Quality of life as patient-reported outcomes: principles of assessment. Dialogues Clin. Neurosci. 16(2): 137—145.
9. Bullinger M, von Mackensen S, Fischer K, Khair K, Petersen C, Ravens-Sieberer U, Rocino A, Sagnier P, Tusell JM, van den Berg M, Vicariot M. (2002). Pilot testing of the 'Haemo-QoL' quality of life questionnaire for haemophiliac children in six European countries. Haemophilia. 8(2): 47—54.
10. Deshbhratar DP. (2016). Comparison of Quality of Life in Adults and Children with Haemophilia. Imperial Journal of Interdisciplinary Research. 2(7): 733—735.
11. Epstein J, Santo RM, Guillemin F. (2015). A review of guidelines for cross-cultural adaptation of questionnaires could not bring out a consensus. J Clin Epidemiol. 68 (4): 435—441.
12. Espaldon AM, Hernandez FG. (2014). Health-related quality of life Assessment in Filipino children with Hemophilia Aged 4—16 Years in a Tertiary Hospital. J Hemat Thromboemb dis. 2(2): 133.
13. Ferreira AA, Leite IC, Bustamante-Teixeira MT, Correa CS, da Cruz DT, Rodrigues DO, Ferreira MC. (2013). Health-related quality of life in hemophilia: results of the Hemophilia-Specific Quality of Life Index (Haem-a-QoL) at a Brazilian blood center. Bras Hematol Hemoter. 35(5): 314—318.
14. Garcia-Dasi M, Aznar JA, Jimenez-Yuste V, Altisent C, Bonanad S, Mingot E et al. (2015). Adherence to prophylaxis and quality of life in children and adolescents with severe haemophilia A. Haemophilia. 21(4): 458—464.
15. Haemo-QoL. The Quality of life assessment instrument for children and adolescents with haemophilia. Manual. Haemo-QoL Study Group. <http://haemoqol.de/scoring/manual/>
16. Haemo-QoL. The Quality of life assessment instrument for children and adolescents with haemophilia. Questionnaire. Download. Haemo-QoL Study Group. <http://haemoqol.de/questionnaire/download/#all>
17. Johnson LR, Karunakaran UD. (2014). How to Choose the Appropriate Statistical Test Using the Free Program «Statistics Open For All» (SOFA). Annals of Community Health. 2(2): 54—62.
18. Mackensen von S, Campos G, Acquadro C, Strandberg-Larsen M. (2013). Cross-cultural adaptation and Linguistic Validation of agegroup specific haemophilia patient-reported outcome (PRO) instruments for patients and parents. Haemophilia. 19 (2): 73—83.
19. Mercan A, Sarper N, Inanir M, Mercan HI, Zengin E, Kilic SC, Gokalp AS. (2010). Hemophilia-Specific Quality of Life Index (Haemo-QoL and Haem-A-QoL questionnaires) of children and adults: result of a single center from Turkey. J Pediatr Hematol Oncol. 27 (6): 449—461.
20. Miners AH, Sabin CA, Tolley KH. (1999). Assessing health-related quality-offifein individuals with haemophilia. Haemophilia. 5: 378—385.
21. Novik A, Salek S, Ionova T. (2012). Guidelines patient — reported outcomes in hematology. Genoa: Litoprint. 210.
22. Oladapo AO, Epstein JD, Williams E, Ito D, Gringeri A, Valentino LA. (2015). Health-related quality of life assessment in haemophilia patients on prophylaxis therapy: a systematic review of results from prospective clinical trials. Haemophilia. 21(5): 344—358.
23. Poon JL, Doctor JN, Nichol MJB. (2014). Longitudinal changes in health-related quality of life for chronic diseases: an example in hemophilia A. Gen Intern Med. 29(3): 760—766.
24. Runkel B, Von Mackensen S, Hilberg T. (2017). RCT — subjective physical performance and quality of life after a 6-month programmed sports therapy (PST) in patients with haemophilia. Haemophilia. 23(1): 144—151.
25. Sangoseni O, Hellman M, Hill C. (2013). Development and validation of a questionnaire to assess the effect of online learning on behaviors, attitude and clinical practices of physical therapists in United States regarding of evidence-based practice. Internet J Allied Health Sci Pract. 11: 1—12.
26. Simpson ML, Valentino LA. (2012). Management of joint bleeding in hemophilia. Expert Rev Hematol. 5(4): 459—468.
27. Taha MY, Hassan MK. (2014). Health-related quality of life in children and adolescents with hemophilia in Basra, Southern Iraq. J Pediatr Hematol Oncol. 36(3): 179—184.
28. Tantawy AA, Mackensen SV, El-Laboudy MA, Labib JH, Mofthah F, El-Telbany MA, Mansour WA. (2011). Health-related quality of life in Egyptian children and adolescents with hemophilia A. J Pediatr Hematol Oncol. 28(3): 222—229.
29. The Survey Research Center, Institute for Social Research, University of Michigan. Guidelines for Best Practice in Cross-Cultural Surveys. FOURTH EDITION. Revised August 2016. http://ccsg.isr.umich.edu/images/PDFs/CCSG_Full_Guidelines_2016_Version.pdf
30. von Mackensen S, Bullinger M, Haemo-QoL Group. (2004). Development and testing of an instrument to assess the Quality of Life of Children with Haemophilia in Europe (Haemo-QoL). Haemophilia. 10(1): 17—25.
31. Williams K, Antoniou G, Jackson A, Atkins A. (2016). Parents' perception of quality of life in their sons with haemophilia. J Paediatr Child Health. 52 (12): 1095—1098.
32. Young NL, Bradley CS, Blanchette V. (2004). Development of a health-related quality of life measure for boys with haemophilia: the Canadian Haemophilia Outcomes — Kids Life Assessment Tool (CHO-KLAT). Haemophilia. 10(1): 34—43.

Сведения об авторах:

Маркин Андрей Игоревич — аспирант каф. педиатрии и неонатологии ФПДО Львовского НМУ имени Д. Галицкого. Адрес: г. Львов, ул. Пекарская, 69. Статья поступила в редакцию 15.03.2018 г., принята к печати 11.09.2018 г.