

## Результати дослідження чутливості української версії опитувальника Наето-QoL

For cite: Zdorov'e rebenka. 2018;13(3):338-344. doi: 10.22141/2224-0551.13.3.2018.132909

**Резюме. Мета:** визначити чутливість до змін української версії опитувальника для оцінки якості життя, пов'язаної зі здоров'ям, дітей із гемофілією Наето-QoL. **Матеріали та методи.** Оцінка якості життя визначалась кореспондентським методом двічі (первинне та повторне анкетування) шляхом обстеження 48 респондентів — учасників дослідження (24 дитини, хворі на гемофілію А, та 24 їх батька) із використанням пілотної української повної версії опитувальника Наето-QoL. Тривалість дослідження становила 4 місяці. Модель обстеження: індивідуальне й електронне анкетування. Пацієнтів розподілено на дві групи: група I — погіршення, група II — покращання загального стану. Дані інтерв'ювання проаналізовані і, відповідно, визначено кореляційний зв'язок за шкалами опитувальника та загальним показником якості життя, амплітуду різниці та ефект розміру  $r$  Кохена між отриманими показниками оцінки якості життя, пов'язаної зі здоров'ям, при первинному та повторному анкетуванні. **Результати.** Установлено, що загальний показник вірогідно збільшився в групі I при повторному обстеженні порівняно з первинним, тоді як у групі II вірогідно зменшився, що характеризує, відповідно, погіршення якості життя, пов'язаної зі здоров'ям, у групі I та покращання в групі II. У групі I виявлено вірогідну зміну показників якості життя за усіма шкалами опитувальника, за винятком шкал «Лікування» та «Сім'я». У групі II виявлено вірогідну різницю в балах за усіма шкалами опитувальника. У результаті ефект розміру Кохена становив для версій опитувальника від 0,33 до 0,54, загальний ефект розміру Кохена — 0,50, що є достатнім для характеристики опитувальника як чутливого до змін інструмента. **Висновки.** Доведено, що українська версія опитувальника Наето-QoL є чутливим до змін інструментом для оцінки, пов'язаної зі здоров'ям, якості життя в дітей із гемофілією А та їх батьків.

**Ключові слова:** гемофілія; психометричні характеристики; якість життя; чутливість опитувальника

### Вступ

Опитувальник Наето-QoL становить собою широко використовуваний інструмент для оцінки якості життя, пов'язаної зі здоров'ям (ЯЖПЗ), у дітей із гемофілією в усьому світі з доведеними задовільними психометричними характеристиками [11, 16–18, 20, 30]. Використання даного опитувальника в Україні на даний історичний момент є неможливим через відсутність валідованої української версії [3]. Щоб визнати українську версію опитувальника Наето-QoL валідованою, необхідним є проведення психометричного аналізу з визначенням ступеня її валідності, надійності та чутливості. Чутливість опитувальника — це одна з трьох ключових психометричних характеристик, що визначається під час

психометричного аналізу та характеризує здатність опитувальника відображати статистично вірогідну зміну балів оцінки якості життя (ОЯЖ) відповідно до змін стану здоров'я дитини, які теоретично та практично повинні впливати на ЯЖПЗ цієї дитини [1, 2]. Одночасно чутливість хворобоспецифічних інструментів для ОЯЖ є одним із найважливіших показників придатності інструмента до використання, оскільки одним з основних показань до визначення ЯЖПЗ у пацієнтів із хронічними захворюваннями є якраз динамічна характеристика якості життя з визначенням тригерних чинників, що на неї впливають (зміна режиму лікування, клінічних характеристик захворювання тощо). У літературі як синонім терміна «чутливість» опитувальника часто

застосовують термін «респонсивність» (в англomовній літературі — responsiveness) [8, 26, 35, 38]. На жаль, часто дослідники під час адаптації інструментів ОЯЖ до умов нового етнолінгвістичного середовища нехтують дослідженням чутливості до змін. Так, за твердженням Maite Solans et al., «...особливе занепокоєння викликає часто відсутність показників чутливості до змін опитувальників... Дослідники повинні прагнути оцінити цей показник під час тестування опитувальників...» [19]. За даними цього ж автора, лише в 10 % із 94 проаналізованих ними опитувальників відмічаються дані про дослідження чутливості до змін. Визначення чутливості до змін опитувальника зазвичай проводиться методом парних порівнянь даних, отриманих при первинному та повторному анкетуванні одного й того ж досліджуваного (чи групи досліджуваних) при зміні клінічних характеристик захворювання. Важливим моментом у дослідженні чутливості до змін опитувальників є також розуміння того, що наявність лише вірогідно значущої різниці між даними первинного та повторного анкетування не може бути єдиною мірою визначення його чутливості, оскільки в такому разі залишається невідомим «розмір» цієї різниці. Так, на думку B. Middel та E. van Sonderen, основна дилема при дослідженні міри впливу певних чинників на досліджувані показники в часі є те, що при великих обсягах вибірки тривіальна різниця між досліджуваними групами може ставати статистично значущою [23]. Саме тому сучасна психометрія розглядає недостатнім дослідження чутливості опитувальника в часі (або «ефекту втручання» у клінометрії) лише на підставі визначення статистично значущих відмінностей між експериментальною та контрольною групами дослідження методом парних порівнянь. Wilkinson та Task Force рекомендували включати в подібні дослідження інформацію щодо ефекту розміру (EP) (в англomовній літературі — effect size) чутливості опитувальника, оскільки, на їх думку, це дасть змогу розрізнити статистичну та практичну значимість отриманих результатів [4]. Однак сьогодні значення EP доволі рідко використовується дослідниками під час валідації опитувальників. Серед найпоширеніших у біомедичних дослідженнях є EP r Кохена (в англomовній літературі — Cohen's d effect size), значення якого вважається задовільним для характеристики інструмента як чутливого при значенні  $\geq 0,2$  [6, 13, 22, 23, 36, 37]. Важливо зауважити, що в сучасних рекомендаціях щодо проведення психометричного аналізу під час адаптації опитувальників до умов нового етнолінгвістичного середовища нами не знайдено чітко встановленої методології визначення чутливості, однак із проаналізованих даних ми можемо зробити висновок, що основною гіпотетичною конструкцією для дослідження чутливості опитувальника, на підставі якої робиться висновок про міру чутливості опитувальника, є така: зміна клінічних характеристик захворювання, здатних вірогідно впливати на показники ЯЖПзЗ та загального суб'єктивного відчуття

респондентом зміни власного самопочуття за період між обстеженнями, відображається у вірогідно значущій зміні показників ЯЖПзЗ у динаміці цих змін [5, 10, 12, 14, 24, 33, 34]. З наведеного вище випливає, що індикаторами для визначення чутливості є два основні критерії: суб'єктивна складова у вигляді думки пацієнта про динаміку власного здоров'я, міру впливу на нього клінічних характеристик захворювання та об'єктивна складова у вигляді змінності клінічних характеристик захворювання в динаміці.

**Мета роботи:** дослідити та проаналізувати чутливість української версії опитувальника для оцінки ЯЖПзЗ дітей із гемофілією Наемо-QoL; визначити придатність до застосування даної версії опитувальника за критерієм чутливості в новому етнолінгвістичному середовищі.

## Матеріали та методи

Етнолінгвістично адаптована українська версія опитувальника Наемо-QoL. Три версії опитувальника з урахуванням вікових груп респондентів: версія Ід — для дітей віком 4–7 років, ІІд — 8–12 років, ІІІд — 13–16 років. Аналогічні версії опитувальника для батьків дітей відповідних вікових груп (Іб, ІІб, ІІІб); 48 бланків відповідей респондентів — учасників первинного анкетування (збір даних проведений в окремому дослідженні), 48 бланків відповідей респондентів — учасників повторного анкетування, клінічна карта стаціонарного хворого, дані ультразвукового обстеження таргетних суглобів.

Пілотне дослідження чутливості української версії опитувальника Наемо-QoL проводилося на базі КЗ ЛОР «Західноукраїнський спеціалізований дитячий медичний центр». У дослідженні брали участь 24 дитини з встановленим діагнозом «гемофілія А, тяжка та середньотяжка форми захворювання» та 24 батька (один із батьків) відповідних дітей. Чутливість опитувальника визначалась методом парних порівнянь між даними ОЯЖ первинного та повторного анкетування. Усі респонденти-діти повторного дослідження повинні були відповісти на запитання «Як змінилося твоє самопочуття протягом останнього місяця?» із варіантами відповідей: «не змінилося», «покращилося», «погіршилося». Критерії включення в дослідження:

1. Діти віком від 4 до 16 років із встановленим діагнозом «гемофілія А» та рівнем у плазмі крові FVIII згортання крові  $\leq 5$  МО/дл.
2. Пацієнти, які відповіли «покращилося» або «погіршилося» на вищенаведене запитання.
3. Зміна клінічних характеристик захворювання пацієнтів, обстежених у первинному анкетуванні. Як індикатор зміни клінічних характеристик обрано кількість суглобових крововиливів.

За даними критеріями пацієнтів розподілено на дві клінічні групи: до І групи (погіршення) включено пацієнтів, які не мали суглобових крововиливів при первинному анкетуванні та мали  $\geq 1$  крововиливу в суглоб протягом одного місяця напередод-

ні повторного анкетування, а також дали відповіді «погіршилося» на вищенаведене запитання. До II групи (покращення) включено пацієнтів, які мали суглобові крововиливи при первинному анкетуванні та не мали крововиливів протягом одного місяця напередодні повторного анкетування і які дали відповіді «покращилося» на вищенаведене запитання. Такий розподіл був зроблений на підставі припущення, що суглобові крововиливи погіршують ЯЖПз3 у пацієнтів із гемофілією, що продемонстровано в ряді проведених раніше досліджень [25, 27–29, 31, 32], а також гіпотетичного припущення, що відчуття дитиною покращання/погіршення загального самопочуття повинно відображатися зміною показників ЯЖ. Тривалість спостереження становила від 1 місяця (мінімальний інтервал зміни клінічних характеристик захворювання) до 4 місяців (максимальний інтервал зміни клінічних характеристик захворювання). Статевікова та клініко-нозологічна структура респондентів подана в табл. 1. Анкетування проводилося кореспондентським методом. Реєстрація крововиливів у суглоби проводилася за допомогою загальноклінічного методу, методу ретроспективного аналізу клінічних карт пацієнтів, УЗД-методу уражених суглобів. Усі учасники дослідження вільно володіли українською мовою, були детально проінформовані про мету та хід дослідження. Показники ЯЖ, отримані при анкетуванні з використанням української пілотної версії опитувальника Наємо-QoL, відображені в трансформованому вигляді (де TSS 1 — бали ОЯЖ при первинному анкетуванні, TSS 2 — бали ОЯЖ при повторному анкетуванні) із використанням відомої формули [15], при чому більші показники TSS свідчать про гіршу якість життя з інтервалом допустимих значень від 0 до 100 балів (де 0 — максимально добра ЯЖ, а 100 — максимально погана ЯЖ).

Для проведення статистичного дослідження попередньо був здійснений аналіз груп на нормальність розподілу з проведенням аналізу ексцесу й асиметрії, тестів Колгморора — Смірнова та Шапіро — Уїлка, а також аналізу гістограм та нормограм розподілу. З огляду на те, що більшість показників за характеристикою розподілу відрізнялася від нормального, результати дослідження були подані у вигляді Me (25 %; 75 %), де Me — медіана, 25 % — перший квартиль (25-й процентиль), 75 % — третій квартиль (75-й процентиль). Для оцінки вірогідності різниці кожного показника ЯЖ між шкалами опитувальника при первинному та повторному обстеженні (значення TSS 1 та TSS 2 кожного показника опитувальника) у групах I та II було використано непараметричний W-критерій Вілкоксона для пов'язаних груп. Для цього результати ОЯЖ за кожним показником розподіляли на підгрупи за критерієм «покращення» та «погіршення» і проводили порівняння значення показника в кожній підгрупі при первинному та повторному анкетуванні (TSS 1 та TSS 2).

Для оцінки чутливості опитувальника в різних групах оцінювалась різниця показників загальної ЯЖ (середнє за шкалами опитувальника для кожного респондента) первинного та повторно анкетування (ЯЖ TSS 1 та ЯЖ TSS 2). Оскільки завданням було оцінити амплітуду різниці (A), а не її абсолютне значення, отримані значення аналізувались у подальшому за модулем за формулою:  $A = |ЯЖ\ TSS\ 1 - ЯЖ\ TSS\ 2|$ . При цьому показник A визначався при розподілі респондентів на групи відповідно до вікових версій опитувальника. Для виявлення статистичної вірогідності різниці між показниками різниці A різних груп використовувався U-критерій Мана — Уїтні. Для оцінки EP показника A при порівнянні між двома групами використовувався г Кохена для непараметричних даних, що вираховується за формулою  $g = z/\sqrt{N}$  (1), де N — кількість членів обох вибірок, z — точне значення z, отримане при визначенні U-критерія Мана — Уїтні. У подальшому отримане значення g оцінювалось за шкалою від 0,1 до 0,3 як мала різниця, від 0,3 до 0,5 — як середня різниця, від 0,5 і вище — як велика різниця [7, 9, 13]. Для статистичного аналізу отриманих даних було використано програмне забезпечення SofaStat v.1.4.6 [21].

## Результати та обговорення

При порівнянні показників первинного та повторного анкетування пацієнтів із гемофілією A та їх батьків виявлено, що всі показники шкал опитувальника (Me балів ЯЖ) у групі I при повторному обстеженні були більшими від показників первинного обстеження. Це стосується і показника оцінки загальної якості життя (ЯЖ TSS 1, 2) для відповідних респондентів. У всіх показників різниця між повторним та первинним обстеженням була статистично вірогідною (табл. 2). Таким чином, погіршення ЯЖПз3 спостерігалось за усіма шкалами опитувальника при погіршенні загального стану. Такі динамічні зміни показників ЯЖ характеризують насамперед здатність опитувальника та відповідних його шкал реагувати на зміни клінічного перебігу захворювання (крововиливів у суглоби) та зміну загального самопочуття, пов'язаного із захворюванням і вираженого в суб'єктивній його оцінці пацієнтом. Щодо аналізу динаміки показників ЯЖ у респондентів II групи виявлено, що всі показники TSS для шкал опитувальника та загальні показники ЯЖ при повторному анкетуванні були меншими за показники первинного анкетування, що свідчить про покращання якості життя за відповідними шкалами опитувальника та ЯЖ загалом. Однак така різниця між первинним та повторним анкетуванням не була статистично вірогідною для шкал «Сім'я» ( $p = 0,091$ ,  $W = 14,0$ ) та «Лікування» ( $p = 0,176$ ,  $W = 6,0$ ). Відсутність статистично вірогідної різниці для даних шкал можна обґрунтувати насамперед їх змістовним навантаженням. Так, у шкалі «Сім'я», структурне навантаження якої формують 4 (для версій I д/б), 5 (для версій II д/б) та 8 (для версій III д/б) запитань,

ОЯЖ ґрунтується на оцінці фізичних та психологічних стосунків батьків та дітей (наприклад, запитання «мої батьки критикували мене, коли я поранився...» чи «моя мама занадто сильно піклувалась про мене...»). Очевидно, що в даній групі респондентів покращання загального самопочуття протягом останнього місяця та відсутність крововиливів не призводять до різкої зміни стосунків та ступеня турботи батьків про дитину через «ефект пам'яті» попередніх крововиливів та розуміння їх ризику та потенційних ускладнень. Безумовно, таке обґрунтування не може мати сьогодні доказової основи в міру відсутності подібних досліджень у світовій практиці, які б описували взаємозв'язок динаміки такого «ефекту пам'яті» та показників відповідної шкали в пацієнтів із гемофілією. Відтак, відсутність покращання ЯЖПЗЗ у даній шкалі можна вважати допустимим у пацієнтів даної групи. Щодо шкали «Лікування», структурне навантаження якої формують 2 (для версій I д/б), 7 (для версій II д/б), 8 (для версій III д/б) запитань, ОЯЖ ґрунтується на оцінці відношень дитини та батьків до відповідних установ, де надається медична допомога, медичного персоналу та медичних втручань (наприклад, запитання «мені не подобалося відвідувати лікарню, де лікують гемофілію...» чи «мене дратували уколи...»). Варто зазначити, що в частини дітей у даній групі відсутність крововиливів обумовлена зміною режиму лікування, у тому числі збільшенням частоти ін'єкцій, що, безумовно, могло мати вплив на відношення дитини та її батьків до

лікування загалом. Однак ОЯЖ залежно від методу та режиму лікування нами не проводилося в даному дослідженні.

Амплітуда різниці (А) для різних вікових версій опитувальника, що визначена при первинному та повторному анкетуванні, має максимальне значення у версії для дітей віком 4–7 років (Ід), однак статистично вірогідною ця різниця є лише при порівнянні з групами ІІб та ІІд ( $p = 0,038$  при  $U = 17$  в обох випадках), порівняння з групами ІІІб та ІІІд не є статистично вірогідним ( $p = 0,077$  при  $U = 12$  в обох випадках), так само не є статистично вірогідною різниця при порівнянні з групою Іб ( $p = 0,145$  при  $U = 24$ ). Слід підкреслити, що відсутність статистичної вірогідності обумовлена, очевидно, малим обсягом вибірки для проведення повноцінного аналізу в даних групах. Значення ЕР різниці показника А для версій вікових версій опитувальника становило від 0,33 до 0,54, що загалом трактується як середня та велика різниця між показниками первинного та повторного дослідження (ЕР різниці при порівнянні між цими групами вказується попри відсутність статистично вірогідної різниці між ними для ознайомлення з огляду на вищевказану причину відсутності такої вірогідності). З урахуванням того, що версія опитувальника «Ід» має максимальне значення різниці А показників якості життя TSS 1 та TSS 2 (первинне та повторне анкетування) серед усіх версій опитувальника, це може вказувати на найбільшу чутливість даної версії опитувальника саме

**Таблиця 1. Статеві-вікова та клініко-нозологічна структура респондентів**

Назва	Абсолютна кількість респондентів	%
Загальна кількість респондентів	48	100
Респонденти-діти	24	50
Тяжка форма гемофілії А*	16	67
Середня форма гемофілії А**	8	33
Хлопці	24	100
Дівчата	0	0
Респонденти-батьки	24	50
Мати	18	75
Батько	6	25
<b>Вікові групи респондентів відповідно до версій опитувальника</b>		
I — діти віком 4–7 років	9	19
I — батьки	9	19
II — діти віком 8–12 років	9	19
II — батьки	9	19
III — діти віком 13–16 років	6	12
III — батьки	6	12
<b>Групи респондентів за критерієм розподілу</b>		
I — покращання	14	29
II — погіршення	34	71

**Примітки:** \* — рівень FVIII плазми крові  $\leq 1$  МО/дл; \*\* — рівень FVIII плазми крові 1–5 МО/дл.



для цієї групи пацієнтів. Слід наголосити, що обмежена кількість респондентів кожної вікової групи не дозволяє інтерпретувати отримані дані показників А як остаточні в контексті порівняння чутливості даних версій. Одночасно отримані показники ЕР дозволяють стверджувати, що усі версії опитувальника мають достатню чутливість до змін. Значення

ЕР різниці при порівнянні загального значення ЯЖ TSS 1 та ЯЖ TSS 2 становило 0,50 (різниця статистично вірогідна ( $p = 0,0006$ ,  $W = 249$ )), що дозволяє трактувати цю різницю як велику та загалом характеризувати опитувальник як чутливий до змін.

Таким чином, наявна статистично вірогідна різниця між показниками загальної ЯЖ та показника-

**Таблиця 2. Показники ОЯЖ (Ме) респондентів групи I (погіршення) та II (покращання) при первинному та повторному анкетуванні**

Шкала опитувальника	Група	N	TSS 1 (n = 48)	TSS 2 (n = 48)	$P_{1,2}$	W
Фізичне здоров'я	I	48	34,82 (17,86; 43,75)	60,71 (46,43; 71,43)	0,0001	0
	II		73,22 (64,29; 78,57)	53,57 (43,75; 57,14)	0,0017	0
Самопочуття	I	48	17,86 (8,33; 33,33)	39,29 (25,00; 50,00)	0,0001	9
	II		43,76 (37,50; 50,00)	32,29 (18,75; 40,63)	0,0009	0
Самооцінка	I	48	23,75 (12,50; 27,50)	36,11 (25,00; 50,00)	0,0001	0
	II		47,36 (35,00; 61,11)	33,05 (25,00; 45,00)	0,028	6
Сім'я	I	48	50,00 (37,50; 65,00)	57,81 (50,00; 75,00)	0,0001	8,5
	II		68,75 (62,50; 75,00)	62,50 (50,00; 65,63)	<b>0,091</b>	14
Друзі	I	48	31,25 (18,75; 50,00)	50,00 (50,00; 62,50)	0,0001	0
	II		56,25 (50,00; 75,00)	43,75 (25,00; 50,00)	0,012	0
Підтримка оточуючих	I	36	35,41 (25,00; 56,25)	37,50 (31,25; 75,00)	0,0005	5,5
	II		46,88 (34,38; 62,50)	28,13 (25,00; 62,50)	0,027	0
Інші люди	I	48	16,67 (12,50; 25,00)	33,33 (25,00; 50,00)	0,0001	0
	II		35,41 (29,17; 41,67)	25,00 (16,67; 33,33)	0,0034	0
Спорт та школа*	I	48	36,11 (33,33; 46,88)	58,86 (50,00; 66,67)	0,0001	0
	II		72,22 (65,63; 80,56)	50,00 (41,67; 58,33)	0,0014	0
Життя з гемофілією	I	36	30,36 (17,86; 42,86)	39,29 (35,71; 60,71)	0,0001	0
	II		57,14 (41,07; 75,00)	46,43 (30,36; 53,57)	0,018	0
Лікування	I	48	28,13 (15,63; 50,00)	43,30 (28,57; 54,14)	0,0001	1
	II		65,63 (37,50; 75,00)	53,57 (37,50; 75,00)	<b>0,176</b>	6
Майбутнє	I	6	28,13 (15,63; 50,00)	43,30 (28,57; 54,14)	0,027	0
	II		34,41 (18,75; 50,00)	12,50 (6,25; 18,75)	0,027	0
Відносини	I	6	25,00 (12,50; 37,50)	68,75 (62,50; 75,00)	0,028	0
	II		43,75 (25,00; 75,00)	25,00 (25,00; 37,50)	0,043	0
Загальна ЯЖ	I	48	32,35 (22,19; 36,55)	49,64 (44,71; 56,25)	0,0001	0
	II		57,60 (52,08; 62,73)	43,88 (39,46; 49,42)	0,0009	0

**Примітки:** \* — для версії опитувальника Ід/Іб аналог шкали «Дитячий садок/дошкільний заклад/школа», N — кількість респондентів, у яких обстежена ЯЖ за відповідною шкалою, TSS 1 — Ме балів ОЯЖ при первинному анкетуванні, TSS 2 — Ме балів ОЯЖ при повторному анкетуванні,  $P_{1,2}$  — порівняння показників TSS 1 та TSS 2, W — непараметричний W-критерій Вілкоксона для пов'язаних груп.

**Таблиця 3. Значення А в різних вікових групах**

Вікова група	Ме	N	25%	75%
Іб	21,04	9	14,32	25,58
Ід	26,04	9	16,41	35,42
ІІб	15,23	9	10,86	18,3
ІІд	16,41	9	9,49	18,48
ІІІб	13,82	6	11,98	17,85
ІІІд	15,13	6	12,58	19,24

**Примітки:** Ме — медіана, N — обсяг вибірки, 25% — перший кuartиль, 75% — третій кuartиль.

ми ОЯЖ за більшістю шкал опитувальника в обох групах пацієнтів між обстеженнями, значення EP Кохена  $\geq 0,33$  для усіх вікових версій опитувальника та значення загального для версій опитувальника EP Кохена 0,50 дозволяють нам стверджувати, що українська пілотна версія опитувальника Наемо-QoL є чутливим інструментом для оцінки ЯЖПЗЗ у пацієнтів із гемофілією як при покращанні, так і при погіршенні загального стану за критерієм кількості крововиливів та суб'єктивною її оцінкою самим респондентом.

## Висновки

1. Виявлено, що українська версія опитувальника Наемо-QoL має достатню чутливість для кількісного відображення зміни показників якості життя, пов'язаної зі здоров'ям, пацієнтів із гемофілією А у відповідь на зміну клінічних характеристик захворювання (крововиливи в суглоби) та суб'єктивної зміни загального самопочуття.

2. Достатня чутливість опитувальника є лише однією з трьох основних психометричних характеристик даного опитувальника. З урахуванням достатньої валідності даного опитувальника, що підтверджена в проведеному раніше дослідженні, необхідним є подальше дослідження надійності даного опитувальника для визнання української версії опитувальника Наемо-QoL валідованою та легітимного його застосування в практичній та теоретичній медицині.

**Конфлікт інтересів.** Автор заявляє про відсутність конфлікту інтересів при підготовці даної статті.

## References

- Novik AA, Ionova TI. *Issledovanie kachestva zhizni v pediatrii [Study of the Quality of Life in Pediatrics]*. 2<sup>nd</sup> ed. Moscow: RAEN; 2013. 136 p. (in Russian).
- Tanzharykov ES, Khozhaev AA, Manambaeva ZA. Language, cultural adaptation and validation questionnaire module FACT-B. *Vestnik KazNMU*. 2016;(1):725-728. (in Russian).
- Markin AI, Dubey LYa, Komendant KhM, Dubey NV. Health-related quality of life in children with hemophilia A: international experience and national realities. *Perinatologiya i Pediatriya*. 2017;(72):125-133. (in Ukrainian).
- Bodner TE. *Standardized Effect Sizes for Moderated Conditional Fixed Effects with Continuous Moderator Variables*. *Front Psychol*. 2017 Apr 21;8:562. doi: 10.3389/fpsyg.2017.00562.
- Bullinger M, Quitmann J. *Quality of life as patient-reported outcomes: principles of assessment*. *Dialogues Clin Neurosci*. 2014 Jun;16(2):137-45.
- Cohen J. *A power primer*. *Psychol Bull*. 1992 Jul;112(1):155-9.
- Cohen J. *Statistical power analysis for the behavioral sciences*. 2<sup>nd</sup> ed. Hillsdale, NJ: Lawrence Erlbaum Associates; 1988. 567 p.
- Kean J, Monahan PO, Kroenke K, et al. Comparative responsiveness of the PROMIS Pain Interference short forms, Brief Pain Inventory, PEG, and SF-36 Bodily Pain subscale. *Med Care*. 2016 Apr;54(4):414-21. doi: 10.1097/MLR.0000000000000497.
- Coolican H. *Research methods and statistics in psychology*. 6th Revised ed. London, United Kingdom: Taylor & Francis Ltd; 2014. 788 p.
- von Mackensen S, Campos IG, Acquadro C, Strandberg-Larsen M. Cross-cultural adaptation and Linguistic Validation of age-group specific haemophilia patient-reported outcome (PRO) instruments for patients and parents. *Haemophilia*. 2013 Mar;19(2):e73-83. doi: 10.1111/hae.12054.
- Deshbhratar DP. *Comparison of Quality of Life in Adults and Children with Haemophilia*. *Imperial Journal of Interdisciplinary Research*. 2016;2(7):733-735.
- Epstein J, Santo RM, Guillemin F. *A review of guidelines for cross-cultural adaptation of questionnaires could not bring out a consensus*. *J Clin Epidemiol*. 2015 Apr;68(4):435-41. doi: 10.1016/j.jclinepi.2014.11.021.
- Fritz CO, Morris PE, Richler JJ. *Effect size estimates: current use, calculations, and interpretation*. *J Exp Psychol Gen*. 2012 Feb;141(1):2-18. doi: 10.1037/a0024338.
- Beaton DE, Bombardier C, Guillemin F, Ferraz MB. *Guidelines for the Process of Cross-Cultural Adaptation of Self-Report Measures*. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2000 Dec 15;25(24):3186-91.
- Haemo-QoL Study Group. *Manual (revised 2018)*. Available from: <http://haemoqol.de/scoring/manual/>
- Gringeri A, Mackensen von S, Auerswald G, et al. *Health status and health-related quality of life of children with haemophilia from six West European countries*. *Haemophilia*. 2004 Mar;10 Suppl 1:26-33.
- Oladapo AO, Epstein JD, Williams E, Ito D, Gringeri A, Valentino LA. *Health-related quality of life assessment in haemophilia patients on prophylaxis therapy: a systematic review of results from prospective clinical trials*. *Haemophilia*. 2015 Sep;21(5):e344-58. doi: 10.1111/hae.12759.
- Tantawy AA, Mackensen von S, El-Laboudy MA, et al. *Health-related quality of life in Egyptian children and adolescents with hemophilia A*. *Pediatr Hematol Oncol*. 2011 Apr;28(3):222-9. doi: 10.3109/08880018.2010.535116.
- Solans M, Pane S, Estrada MD, et al. *Health-related quality of life measurement in children and adolescents: a systematic review of generic and disease-specific instruments*. *Value Health*. 2008 Jul-Aug;11(4):742-64. doi: 10.1111/j.1524-4733.2007.00293.x.
- Mercan A, Sarper N, Inanir M, et al. *Hemophilia-Specific Quality of Life Index (Haemo-QoL and Haem-A-QoL questionnaires) of children and adults: result of a single center from Turkey*. *Pediatr Hematol Oncol*. 2010 Sep;27(6):449-61. doi: 10.3109/08880018.2010.489933.
- Johnson LR, Karunakaran UD. *How to Choose the Appropriate Statistical Test Using the Free Program "Statistics Open For All" (SOFA)*. *Annals of Community Health*. 2014;2(2):54-62.
- Lee DK. *Alternatives to P value: confidence interval and effect size*. *Korean J Anesthesiol*. 2016 Dec;69(6):555-562. doi: 10.4097/kjae.2016.69.6.555.
- Middel B, Sonderer van E. *Statistical significant change versus relevant or important change in (quasi) experimental design: some conceptual and methodological problems in estimating magnitude of intervention-related change in health services research*. *Int J Integr Care*. 2002;2:e15.
- Novik A, Salek S, Ionova T. *Guidelines patient – reported outcomes in hematology*. Genoa: Litoprint; 2012. 210 p.
- Poon JL, Doctor JN, Nichol MB. *Longitudinal changes in health-related quality of life for chronic diseases: an example in hemophilia A*. *J Gen Intern Med*. 2014 Aug;29 Suppl 3:S760-6. doi: 10.1007/s11606-014-2893-y.
- Schroter S, Miles R, Green S, Jackson M. *Psychometric validation of the Coronary Revascularisation Outcome Questionnaire (CROQv2) in the context of the NHS Coronary Revascularisation PROMs Pilot*. *BMJ Open*. 2017 Feb 28;7(2):e015915. doi: 10.1136/bmjopen-2017-015915.
- Runkel B, Mackensen von S, Hilberg T. *RCT - subjective physical performance and quality of life after a 6-month programmed sports therapy (PST) in patients with haemophilia*. *Haemophilia*. 2017 Jan;23(1):144-151. doi: 10.1111/hae.13079.
- Simpson ML, Valentino LA. *Management of joint bleeding in hemophilia*. *Expert Rev Hematol*. 2012 Aug;5(4):459-68. doi: 10.1586/ehm.12.27.
- Taha MY, Hassan MK. *Health-related quality of life in children and adolescents with hemophilia in Basra, Southern Iraq*. *J Pediatr Hematol Oncol*. 2014 Apr;36(3):179-84. doi: 10.1097/MPH.0000000000000117.
- Lee C, Berntorp E, Hoots K, editors. *Textbook of Haemophilia*. 3<sup>rd</sup> ed. Oxford: Wiley-Blackwell; 2014. 560 p.

31. Bagheri S, Beheshtipoor N, Rambod M, Karimi M, Zare N, Hashemi F. The Quality of Life of children with Hemophilia in Shiraz, Iran. *IJCBNM*. 2013;1(2):110-120.
32. Klamroth R, Pollmann H, Hermans C, et al. The relative burden of haemophilia A and the impact of target joint development on health-related quality of life: results from the ADVATE Post-Authorization Safety Surveillance (PASS) study. *Haemophilia*. 2011 May;17(3):412-21. doi: 10.1111/j.1365-2516.2010.02435.x.
33. The Survey Research Center. *Guidelines for Best Practice in Cross-Cultural Surveys*. 4th ed. 2016. Available from: <http://ccsg.isr.umich.edu/>
34. The World Health Organization quality of life assessment (WHOQOL): position paper from the World Health Organization. *Soc Sci Med*. 1995 Nov;41(10):1403-9.
35. Rejano-Campo M, Ferrer-Peña R, Urraca-Gesto MA, et al. Transcultural adaptation and psychometric validation of a Spanish-language version of the "Pelvic Girdle Questionnaire". *Qual Quant*. 2017 Feb 1;15(1):30. doi: 10.1186/s12955-017-0605-0.
36. Minami T, Serlin RC, Wampold BE, et al. Using clinical trials to benchmark effects produced in clinical. *Quality & Quantity: International Journal of Methodology*. 2008;42(4):513-525. doi: 10.1007/s11135-006-9057-z.
37. Pouchot J, Despujol C, Malamut G, Ecosse E, Coste J, Celler C. Validation of a French Version of the Quality of Life "Celiac Disease Questionnaire". *PLoS One*. 2014 May 2;9(5):e96346. doi: 10.1371/journal.pone.0096346.
38. De Boer AS, Meuffels DE, Van der Vlies CH, et al. Validation of the American Orthopaedic Foot and Ankle Society Ankle-Hindfoot Scale Dutch language version in patients with hindfoot fractures. *BMJ Open*. 2017 Nov 14;7(11):e018314. doi: 10.1136/bmjopen-2017-018314.

Отримано 04.04.2018 ■

Маркин А.И.

Львівський національний медичний університет ім. Данила Галицького, г. Львів, Україна

### Результаты исследования чувствительности украинской версии опросника Наемо-QoL

**Резюме. Цель:** определить чувствительность к изменениям украинской версии опросника для оценки качества жизни, связанного со здоровьем, детей с гемофилией Наемо-QoL. **Материалы и методы.** Оценка качества жизни определялась корреспондентским методом дважды (первичное и повторное анкетирование) путем обследования 48 респондентов — участников исследования (24 ребенка, больные гемофилией А, и 24 их родителя) с использованием пилотной украинской полной версии опросника Наемо-QoL. Продолжительность исследования составила 4 месяца. Модель обследования: индивидуальное и электронное анкетирование. Пациенты разделены на две группы: группа I — ухудшение, группа II — улучшение общего состояния. Данные интервьюирования проанализированы и, соответственно, определены корреляционная связь по шкалам опросника и общему показателю качества жизни, амплитуда разницы и эффект размера  $r$  Кохена между полученными показателями оценки качества жизни, связанного со здоровьем, при первичном и повторном анкетировании. **Результаты.** Установлено,

что общий показатель достоверно увеличился в группе I при повторном обследовании по сравнению с первичным, тогда как в группе II достоверно уменьшился, что характеризует, соответственно, ухудшение качества жизни, связанной со здоровьем, в группе I и улучшение в группе II. В группе I обнаружено достоверное изменение показателей качества жизни по всем шкалам опросника, за исключением шкалы «Лечение» и «Семья». В группе II выявлена достоверная разница в баллах по всем шкалам опросника. В результате эффект размера Кохена составлял для версий опросника от 0,33 до 0,54, общий эффект размера Кохена — 0,50, что является достаточным для характеристики опросника как чувствительного к изменениям инструмента. **Выводы.** Доказано, что украинская версия опросника Наемо-QoL является чувствительным к изменениям инструментом для оценки, связанной со здоровьем, качества жизни у детей с гемофилией А и их родителей.

**Ключевые слова:** гемофилия; психометрические характеристики; качество жизни; чувствительность опросника

A.I. Markin

Danylo Halytskyi Lviv National Medical University, Lviv, Ukraine

### Results of studying the sensitivity of Ukrainian version of Haemo-QoL Questionnaire

**Abstract. Background.** To determine the sensitivity to changes of the Ukrainian version of questionnaire for assessing the health-related quality of life in children with hemophilia (Haemo-QoL) was the purpose of our work. **Materials and methods.** The quality of life was evaluated with correspondent method twice (primary and repeated questioning) by examining 48 respondents (24 children with hemophilia A and 24 their parents) using the pilot Ukrainian full version of the Haemo-QoL questionnaire. Duration of the study was 4 months. Survey model: individual and electronic questioning. Patients were divided into two groups: group I — deterioration, group II — improvement of general condition. The interviewing data were analyzed, and correlation was identified according to the questionnaire scales and the general quality of life, the difference amplitude and the Cohen's  $r$  effect size between the obtained indicators of the health-related quality of life in the primary and repeated questioning were determined. **Results.** It was found that the

overall indicator significantly increased in group I during the re-examination compared to the primary one, while in group II it decreased significantly that characterizes the deterioration in the health-related quality of life in group I and the improvement in group II. In group I, a significant change in the quality of life indicators was found for all scales of the questionnaire, except for the "Treatment" and "Family" scales. In group II, a significant difference was found in the scores for all the questionnaire scales. As a result, Cohen's  $r$  for the versions of the questionnaire varied from 0.33 to 0.54, and the overall Cohen's  $r$  was 0.50, which is sufficient to characterize the questionnaire as a tool sensitive to changes. **Conclusions.** The author proved that the Ukrainian version of the Haemo-QoL questionnaire is a change-sensitive tool for assessing the health-related quality of life in children with hemophilia A and their parents.

**Keywords:** hemophilia; psychometric characteristics; quality of life; sensitivity of the questionnaire