

TRABAJO FINAL DE GRADO

UNIVERSIDAD MIGUEL HERNÁNDEZ

FACULTAD DE MEDICINA



“Adaptación transcultural al español del Obstructive Sleep Disorders 6 (OSD-6) para evaluar la calidad de vida en niños con Síndrome de Apnea Obstructiva del Sueño (AOS)”

ALUMNA: Yaiza García Jiménez

TUTORA: Regina Ramón Sapena

COTUTOR: Eusebi Chiner Vives

“Ningún soñador es pequeño y ningún sueño es demasiado grande”

Antoine de Saint-Exupéry



Este TFG representa el final de la etapa más dura y bonita que he vivido hasta ahora. Quiero agradecerérselo a:

- Mi familia y amigos, ya que durante estos seis años han entendido mis ausencias y mis agobios, y siempre han estado a mi lado a pesar de que muchas veces yo no he podido estar al suyo.
- A mis compañeros de trabajo, porque siempre me han ayudado en todo lo que han podido sin esperar nada a cambio.
- A Eusebi, porque es un ejemplo a seguir como médico y como persona. Me llevo un recuerdo estupendo de la preparación de este TFG, gracias por haberlo hecho todo tan sencillo.

Índice

Resumen.....	4
Abreviaturas.....	6
INTRODUCCION.....	7
HIPOTESIS.....	8
OBJETIVOS.....	8
MATERIAL Y METODOS.....	9
RESULTADOS.....	13
DISCUSION.....	17
CONCLUSIONES.....	19
BIBLIOGRAFIA.....	20
ANEXOS.....	23
Anexo 1. Versión original OSD-6.....	23
Anexo 2. Versión española del OSD6.....	24
Anexo 3. Cuestionario de recogida de datos.....	26
Anexo 4. Escala de Mallampati.....	29
Anexo 5. Escala de Brodski (grados de hipertrofia amigdalina).	30
Anexo 6. Consentimiento informado.....	31
Anexo 7. Autorización del CEI.....	¡Error! Marcador no definido.
Anexo 8. COIR.....	¡Error! Marcador no definido.

Resumen

Introducción:

La Apnea Obstructiva del Sueño (AOS) es una enfermedad prevalente en la infancia, que influye negativamente en la sensación de bienestar de los niños y afecta a su entorno biopsicosocial. Serían útiles por tanto cuestionarios específicos que puedan evaluar la eficacia de las intervenciones empleadas para mejorar la calidad de vida relacionada con salud (CVRS) de estos pacientes. En el entorno del AOS, todos estos cuestionarios han sido creados en un entorno anglosajón, por lo que, para poder utilizarlos, necesitamos traducirlos y adaptarlos a nuestra cultura. Este trabajo está dirigido a la adaptación al español del cuestionario OSD-6.

Material y métodos:

El proceso se basó en el método de traducción-retrotraducción por profesionales y un estudio piloto con pacientes en diferentes etapas. Las fases del estudio fueron: traducción al español, validación de los cuestionarios, y evaluación de la sensibilidad al cambio. Todos los pacientes fueron diagnosticados mediante polisomnografía (PSG) y los padres/cuidadores fueron sometidos al cuestionario OSD-6 antes y después del tratamiento.

Resultados:

Se incluyeron 60 pacientes. La versión final alcanzó puntuaciones >7 en cuanto a la naturalidad/corrección en todos los ítems y dominios. En cuanto a la consistencia interna, el alfa de Cronbach fue excelente. En el cuestionario global el efecto techo y suelo fue inferior al 2%. La mayoría de correlaciones entre ítems fueron significativas. El cuestionario diferencia adecuadamente la gravedad según el grado de Mallampati (validez predictiva). La diferenciación según el grado de IAH queda en el límite de la significación estadística. La sensibilidad al cambio fue excelente en la puntuación global y en cada uno de los dominios.

Conclusiones:

La elaboración de la versión española de OSD-6 fue factible, gozando de propiedades psicométricas semejantes a la original y mostrando sensibilidad a los cambios tras el tratamiento. El cuestionario validado obtiene información importante sobre el impacto del AOS infantil a través de padres/cuidadores y puede presentar moderada capacidad de discriminación según la gravedad de la enfermedad.

Palabras clave. Apnea Obstructiva del Sueño (AOS), infancia, polisomnografía (PSG), calidad de vida relacionada con la salud (CVRS), cuestionario, validación.

Summary

Introduction:

Obstructive Sleep Apnea (OSA) is a prevalent disease in childhood, which negatively influences children's perception of quality of life. Specific questionnaires that evaluate the effectiveness of interventions used to improve health-related quality of life (HRQOL) of those patients would therefore be useful. At present, all of these questionnaires have been created in an anglo-saxon environment, so, in order to use them, we need to translate them and adapt them to our culture. This research is created to adapt the OSD-6 questionnaire to Spanish.

Methods:

The process was based on the translation – back-translation method by professionals and a pilot study with patients at different stages. The phases of the study were: translation into Spanish, validation of the questionnaires and evaluation of sensitivity to changes. All patients were diagnosed by polysomnography (PSG) and parents/caregivers were submitted to the OSD-6 questionnaire before and after the treatment.

Results:

60 patients were included. The final version achieved scores >7 in terms of naturalness/correctness in all items and domains. Regarding international consistency, Cronbach's alpha was excellent. In the global questionnaire the ceiling and floor effect was less than 2%. Most correlations between items were significant. The questionnaire adequately differentiates severity according to the Mallampati grade (predictive validity). Differentiation according to the degree of AHI remains at the limit of statistical significance. Sensitivity to change was excellent in the global score and in each of the domains.

Conclusions:

The development of the Spanish version of OSD-6 was feasible, having similar psychometric properties to the original and showing sensitivity to changes after treatment. The validated questionnaire obtains important information about the impact of childhood OSA from parents/caregivers and may present moderate discrimination capacity depending on the severity of the disease.

Keywords. Obstructive Sleep Apnea (OSA), childhood, polysomnography (PSG), health-related quality of life (HRQOL), questionnaire, validation.

Abreviaturas

AOS. Apnea Obstructiva del Sueño

CVRS. Calidad de vida relacionada con la salud

OSD-6. Obstructive Sleep Disorders-6

PSG. Polisomnografía

IAH. Índice de Apnea-Hipopnea

CCI. Cociente de correlacion intraclase

IMC. Índice de masa corporal

ORL. Otorrinolaringología

EEG. Electroencefalograma

EOG. Electroculograma

EMG. Electromiograma

ECG. Electrocardiograma

ANOVA. Análisis de varianza



INTRODUCCION

La Apnea Obstructiva del Sueño (AOS) es una patología prevalente en la infancia, afectando hasta el 4% de los niños entre los 2 y los 6 años. Los principales factores de riesgo en estas edades comprenden: hipertrofia amigdalар y adenoidea, obesidad, malformaciones craneofaciales, enfermedades neurológicas y neuromusculares, reflujo gastroesofágico u obesidad, condicionando por norma general una reducción en el diámetro de la vía aérea y por tanto también una disminución del flujo aéreo durante la noche. La principal consecuencia de esta patología está asociada al Sistema Nervioso Central (con síntomas que afectan a la vida cotidiana de los pacientes como somnolencia, irritabilidad, déficit de atención, dificultades para el aprendizaje y la memoria o bajo rendimiento escolar), sin olvidar la morbilidad cardiovascular (arritmias, disfunción autonómica, hipertensión arterial, afectación endotelial o remodelado ventricular) y endocrino-metabólica (1-3).

Recientes metanálisis han demostrado que el AOS influye negativamente en la calidad de vida de los niños, modificando la sensación de bienestar del paciente y afectando a su entorno psico-social. En esta esfera serían útiles cuestionarios validados específicos que presenten gran sensibilidad y que sean capaces de evaluar la eficacia de las intervenciones empleadas para mejorar la calidad de vida relacionada con la salud (CVRS) de los niños con AOS. De igual manera que ocurre en los adultos, se han utilizado cuestionarios genéricos como el *Glasgow Children's Benefit Inventory* (4) o el *Youth Quality of Life Instrument* (5).

El diagnóstico precoz de esta enfermedad es crucial para limitar los síntomas asociados. Para ello, se deben evaluar varios aspectos concretos, además de los genéricos, empezando por una anamnesis exhaustiva que incluya cuestionarios específicos, seguidos de un examen objetivo y un diagnóstico instrumental, siendo la polisomnografía (PSG) el *gold standard* para el diagnóstico del AOS (1). La poligrafía respiratoria domiciliar se ha mostrado igualmente útil para el diagnóstico en población infantil y en la toma de decisiones clínicas (6).

La creación de estos cuestionarios dirigidos específicamente a la infancia y adolescencia es reciente, siendo necesaria la evaluación exhaustiva de sus propiedades psicométricas, ya que tienen peculiaridades específicas en comparación con los

cuestionarios de adultos. En el entorno del AOS, los cuestionarios han sido dirigidos para evaluar la CVRS a través de padres y cuidadores, todos ellos en un entorno anglosajón, por lo que, para poder aplicarlos a nuestra práctica clínica, debemos, no solo traducirlos, sino también adaptarlos a nuestra cultura. Este es un proceso minucioso que debe seguir unos pasos: comprobar que el criterio que se ha de medir existe en el medio al que se quiere adaptar, así como traducir y evaluar las propiedades métricas y psicométricas (validez y fiabilidad) del cuestionario (7).

En la actualidad, existen pocos cuestionarios específicos para el AOS infantil, destacando el OSA-18 (creado en el 2000 y recientemente validado en España), que ha demostrado fiabilidad y sensibilidad para la evaluación de los cambios post-tratamiento en los pacientes con AOS (8,9). Otro cuestionario a tener en cuenta en este ámbito es el *Paediatric throat disorders outcome test (T14)*, que evalúa los resultados obtenidos tras el tratamiento de pacientes pediátricos con AOS y amigdalitis recurrente (10).

De Serres et al (11) proponen el cuestionario OSD-6, compuesto por 6 dominios, que reflejan el funcionamiento del niño en relación con lo siguiente: (1) sufrimiento físico, (2) trastornos del sueño, (3) dificultades del habla y la deglución, (4) angustia emocional, (5) limitaciones de la actividad y (6) nivel de preocupación del cuidador en relación con el AOS y los síntomas asociados. Cada ámbito está representado por una pregunta diseñada para reflejar el efecto global de un grupo de síntomas relacionados con el AOS en un niño concreto. (Anexo 1).

HIPÓTESIS

El empleo de un cuestionario en lengua inglesa previamente utilizado en niños con AOS podría ser útil para valorar la CVRS en población infantil española con sospecha de la enfermedad.

OBJETIVOS

El **objetivo primario** de nuestro estudio fue la adaptación del cuestionario anglosajón OSD 6 a la lengua hispana.

El **objetivo secundario** consistió en analizar la fiabilidad y la validez de la versión española de este cuestionario, para ser empleado en la evaluación inicial y en el seguimiento de niños con AOS.

MATERIAL Y MÉTODOS.

Para la adaptación del OSD-6 se siguieron las directrices de la Comisión Internacional de Test (11), así como las guías propuestas para la adaptación de cuestionarios de CVRS (12). Este proceso se basó en el método traducción-retrotraducción por profesionales, además de un estudio piloto con pacientes en diferentes etapas (13).

Fases del estudio

PRIMERA FASE: traducción al español

Previo consentimiento de los autores del cuestionario original, se realizó una traducción al español por dos expertos bilingües de lengua nativa española. Se unificaron las dos versiones según consenso entre traductores y grupo investigador, y se pasó primero a los padres/cuidadores de los niños para comprobar el grado de comprensión de las preguntas. El texto final fue retro-traducido por un experto traductor bilingüe de lengua nativa inglesa, y tras las correcciones necesarias, se adaptó a la traducción final al español. Los traductores evaluaron la dificultad de la traducción y la retrotraducción de cada ítem, siendo 1 “dificultad mínima” y 10 “dificultad máxima”. El grupo investigador también valoró la naturalidad-corrección de cada ítem de la versión en español del 1 a 10. Finalmente, se realizó la equivalencia conceptual tras la retrotraducción en tres apartados: A (totalmente equivalente), B (bastante equivalente, alguna expresión dudosa), C (equivalencia dudosa).

Esta nueva versión fue remitida a los padres/madres de 10 niños de 2 a 14 años diagnosticados de AOS a partir de PSG, consensuando la versión definitiva del cuestionario (Anexo 2).

SEGUNDA FASE: validación de los cuestionarios.

Para valorar si la versión traducida cumplía las mismas condiciones psicométricas que la versión original, se evaluó la fiabilidad o consistencia interna con el coeficiente α de Cronbach para cada una de las escalas, midiendo así el coeficiente de correlación

media de cada ítem con el total de la escala y con su número total de ítems. Se consideró apropiada cuando fue $>0,4$ entre grupos y $\geq 0,8$ individual (miden una única dimensión). La cohesión del instrumento se valoró mediante la correlación entre subescalas y entre subescala y el total. Para analizar la validez concurrente (constructo), se utilizaron los valores de correlación de Pearson o Spearman en función de la normalidad de distribución de las variables, de los diferentes dominios del cuestionario de forma global y por subescalas, con el índice de apnea-hipopnea (IAH) y otras variables respiratorias y antropométricas. La validez convergente correlacionó cada ítem con su dominio y la validez divergente cada ítem con otros dominios. La validez predictiva se analizó comparando los grupos de pacientes con distintos niveles de gravedad del AOS según el punto de corte en el IAH mediante una prueba t de Student para medias independientes. Para evaluar la fiabilidad test-retest se realizó un análisis de concordancia mediante el coeficiente de correlación intraclass (CCI) del cuestionario inicial y a la semana, por ítems y total, en las mismas condiciones. Se consideró una buena concordancia para valores del CCI superiores a 0,71 y moderada para valores entre 0,51 y 0,70 (14).

Se elaboró un análisis descriptivo de las distintas variables con un estudio de su distribución para valorar el estadístico paramétrico o no paramétrico adecuado y se valoró el efecto “techo” (porcentaje de respuestas con el máximo de puntuación), el efecto “suelo” (porcentaje con el mínimo de puntuación), así como el porcentaje de ítems no contestados y el porcentaje de ítems no aplicables.

TERCERA FASE: sensibilidad al cambio

En esta fase se valoraron los cambios en la calidad de vida mediante OSD-6, en respuesta al tratamiento, comparando los valores de todos los dominios del cuestionario antes y después del tratamiento mediante una prueba t de Student para medias repetidas.

Población

- Criterios de inclusión: Niños entre 2 y 14 años remitidos a la Unidad de Sueño, diagnosticados de AOS mediante polisomnografía (PSG).

- Criterios de exclusión: Imposibilidad para completar el seguimiento por razones de lejanía, inmunodepresión (niños gravemente malnutridos, con inmunodeficiencias primarias y SIDA), rechazo de los padres a participar en el estudio, cirugía previa de vía aérea u otro tipo de intervención, como cauterización o termoplastia).

El protocolo diagnóstico consistió en obtención de medidas antropométricas (peso, talla, IMC, percentil de IMC, perímetro del cuello), cuestionario de síntomas relacionados con el AOS (15,16) (Anexo 3), escala de Mallampati (17) (Anexo 4), escala de Brodski (Anexo 5) para valorar el grado de hipertrofia amigdalар, realización de PSG nocturna hospitalaria vigilada, evaluación basal de cuestionarios OSD-6 administrados a los padres o cuidadores el mismo día de la prueba (anexos 3-5). Tras la PSG los niños fueron remitidos al Servicio de ORL en caso de considerarse susceptibles de tratamiento quirúrgico. Se realizó otra PSG entre los 3 y los 6 meses tras la cirugía para evaluar los cambios en los parámetros respiratorios tras el tratamiento. El mismo día se obtuvieron los datos antropométricos, los cuestionarios de síntomas y se repitió el test OSD-6.

Estudio polisomnográfico

Para el diagnóstico, se empleó un sistema de PSG Alice 5 (Philips Respironics) con monitorización de EEG, EOG, Flujo nasal (sonda de presión), EMG mentoniano, movimientos torácicos y abdominales, ECG y EMG tibial de ambas piernas. Para definir los eventos respiratorios se emplearon los criterios del Documento de consenso del síndrome de apneas-hipopneas durante el sueño en niños (1). Los registros poligráficos fueron interpretados y corregidos manualmente por el mismo observador. Se clasificaron según niveles de gravedad en AOS leve: índice de apneas-hipopneas (IAH) < 5, AOS moderado: IAH de 5 a 10 y AOS grave: IAH > 10 (1).

Cuestionario OSD-6

OSD-6 incluye 32 ítems agrupados en 6 dominios, puntuando cada uno de los ítems en una escala ordinal de 0 a 6 puntos. Los padres califican los dominios en una escala de 0 (no hay problema) a 6 (no puede ser peor) sobre cómo consideran que los síntomas afectan a sus hijos. La puntuación total es la suma de las puntuaciones de cada uno de

los dominios y dividido entre 6 (número total de dominios). Las puntuaciones más bajas corresponden a mejor situación y las más altas a peor situación, oscilando entre 0 y 36. Los dominios del OSD-6 contienen los siguientes scores: sufrimiento físico (8 ítems), alteración del sueño (6 ítems), problemas del habla o la deglución (5 ítems), estrés emocional (7 ítems), limitaciones de la actividad (5 ítems) y preocupaciones del cuidador (1 ítem).

Cálculo del tamaño muestral

Para el estudio inicial se calculó un nivel de confianza o seguridad ($1-\alpha$): 95%; precisión (d): 3%; proporción (valor aproximado del parámetro a medir): 5%, calculando así una muestra necesaria (n) inicial de 80 niños. Ajustando el tamaño muestral a las pérdidas, con una proporción esperada (R) de un 15%, la muestra total se calculó en 60 individuos.

Para el cálculo del número de pacientes necesarios para determinar la fiabilidad test-retest y la sensibilidad al cambio, calculamos un tamaño de muestra de 20 pacientes. El criterio utilizado para la estimación del tamaño de la muestra viene dado por los requerimientos estadísticos necesarios para poder calcular el coeficiente de fiabilidad, suponiendo un valor esperado del coeficiente de fiabilidad $\geq 0,85$, con esa muestra y un intervalo de confianza $\pm 0,10$ para una $Z_{\alpha/2}=1,96$.

Estadística

Se efectuó un análisis descriptivo de las variables cuantitativas, expresadas como media y desviación estándar, o mediana y rango, según tipo de distribución. Se analizó la normalidad de las distribuciones mediante la prueba de Kolmogorov-Smirnov. Además de los cálculos empleados para la validación de los cuestionarios, se empleó el test de ANOVA para medidas repetidas o el de Kruskal-Wallis y el test de comparación múltiple de medias para valorar los cambios en las puntuaciones de cada uno de los cuestionarios. El nivel mínimo exigido para todos los cálculos fue una $p < 0,05$. Los cálculos estadísticos se efectuaron mediante el programa SPSS versión 18.

Aspectos éticos

Se obtuvo consentimiento informado de los padres y cuidadores para realizar el

estudio (Anexo 6). El proyecto respetó los principios fundamentales establecidos en la Declaración de Helsinki, en el Convenio del Consejo de Europa relativo a los derechos humanos y la biomedicina, en la Declaración Universal de la UNESCO sobre el genoma humano y los derechos humanos, así como los requisitos establecidos en la legislación española en el ámbito de la investigación biomédica, la protección de datos de carácter personal y la bioética.

El estudio fue aprobado por el CEI del H. U. Sant Joan d'Alacant (Anexo 7) y siguió las directrices del COIR de la Universidad Miguel Hernández (Anexo 8)

RESULTADOS

Se incluyeron 60 pacientes consecutivos, aceptando los padres la participación en todos los casos. Se evaluaron 45 niños y 15 niñas, con una edad de 6 ± 3 años, un IMC de 18 ± 4 cm/m² y un perímetro de cuello medio de 28 ± 5 cm. El índice de Brodsky fue 0 en un 7%, menor del 25% en un 12%, entre 25 y 50% en un 27%, entre 50 y 75% en un 45% y más de 75% en un 6%. El IAH medio tras la PSG fue de 12 ± 7 h-1.

La dificultad de traducción fue superior a 5 en 8 ítems (23 %). Tras la retrotraducción, se consideraron 4 ítems (11%) de tipo B y 1 de tipo C (3%). Se discutieron las dudas de equivalencia (B y C) y las expresiones equivalentes, pero poco naturales o gramaticalmente incorrectas en una reunión con todos los investigadores y traductores (Tabla 1).

	Dificultad traducción	Dificultad retrotraducción	Equivalencia conceptual	Naturalidad/ Corrección
Sufrimiento físico	1	1.5	A	9
Dolor de garganta	2	3	A	9
Sequedad de garganta	2	2.5	A	8
Congestión nasal	1	2.5	A	8.5
Obstrucción nasal	4	5.5	B	7
Orinarse en la cama	7	4	A	7.5
Cansancio excesivo durante el día	2	3	A	8.5
Falta de aumento de peso	2	2	A	8.5
Mala respiración	4	3	A	9
Globalmente, ¿cuánto problema ha supuesto este sufrimiento físico para su niño/a durante las 4 últimas semanas debido a la hipertrofia adeno-amigdalar?	6	4.5	A	8.5
Alteración del sueño	1	1	A	9
Ronquido	1	1.5	A	9.5
Ahogo/jadeo	4	3.5	B	7
Parada de la respiración	3	2.5	A	7.5
Sueño no reparador	2	2	A	9
Dificultad para despertar del sueño	3	3	A	7
Globalmente, ¿cuánto problema ha supuesto esta alteración del sueño para su niño/a durante las 4 últimas semanas debido a la hipertrofia adeno-amigdalar?	6	4.5	A	9
Problemas del habla o deglución	3	2.5	A	9
Dificultad para tragar ciertos alimentos	2	3	A	8
Atragantarse con alimentos	3	3.5	A	8
Dificultad para el habla	4	3.5	A	9
Voz nasal	4	3.5	A	9
Mala pronunciación	4	4.5	B	7
Globalmente, ¿cuánto problema ha supuesto estos problemas del habla o deglución para su niño/a durante las 4 últimas semanas debido a la hipertrofia adeno-amigdalar?	6	4.5	A	9
Estrés emocional	3	3.5	A	8
Irritable	1	3	A	8
Frustrado	2	3	A	8
Triste	6	3.5	A	9
Inquieto	4	4	A	8.5
Falta de apetito	3	4	A	8.5
Falta de atención	3	4	A	8
Burias de otros niños/as debidas al ronquido	5	5.5	C	6.5
Globalmente, ¿cuánto problema ha supuesto este estrés emocional para su niño/a durante las 4 últimas semanas debido a la hipertrofia adeno-amigdalar?	6	5.5	A	9
Limitaciones de la actividad	1	1.5	A	9
Jugar	1	1	A	9.5
Participar/sobresalir en deportes	4	3	B	7
Hacer cosas con amigos/familia	3	3.5	A	8
Asistir a la escuela o guardería	3	3	A	8.5
Globalmente, ¿cuánto problema han supuesto estas limitaciones de la actividad para su niño/a durante las 4 últimas semanas debido a la hipertrofia adeno-amigdalar?	7	5	A	9
Preocupaciones del cuidador	3	3	A	7.5
¿Usted como cuidador ha estado preocupado, molesto o incomodado debido al ronquido o la dificultad para respirar durante la noche de su niño/a durante las últimas 4 semanas?	7	5	A	8.5

Tabla 1. Primera fase de adaptación del cuestionario.

Se obtuvo una expresión final consensuada para cada uno de estos ítems y actividades, que se incluyó en una segunda versión. La versión final alcanzó puntuaciones > 7 en todos los ítem y dominios. La nueva versión fue administrada a los padres de 10 niños entre 2 y 14 años remitidos a la Unidad de Sueño, diagnosticados de AOS a partir de polisomnografía, consensuando la versión definitiva del cuestionario (Anexo 2).

En el análisis de consistencia interna o fiabilidad, el Alfa Cronbach del cuestionario global fue 0.8 (excelente), con distribuciones normales (o casi-normales) de los ítems, y Alfa de Cronbach estables (entre 0.76-0.78) al retirar ítem a ítem. La consistencia interna fue buena, salvo por un exceso de pacientes (más del 20%) con efecto techo en

los ítems 1,2 y 6 y de efecto suelo en los ítems 3 y 5, aunque el cuestionario global no presentó estos efectos (menos del 2% de efecto techo y suelo). La mayor parte de correlaciones entre ítems fueron significativas (anexo 10)

Dominios OSD-6	Nº Items	% efecto suelo	% efecto techo	Alfa de Cronbach
Sufrimiento físico	1		20%	0,78
Alteración sueño	1		20%	0,76
Alt habla/deglución	1	15%		0,76
Estrés emocional	1			0,78
Limitación Actividad	1	15%		0,78
Preocupación cuidador	1		20%	0,76
Global	6	2%	2%	0.8

Tabla 2. Validez de constructo del cuestionario OSD6

Al analizar la validez de constructo, dado que el cuestionario está compuesto por 6 ítems o preguntas sin dominios compuestos, no fue aplicable un análisis factorial para valorar la semejanza del constructo al original. La validez concurrente se comportó de forma estable y es significativa en su correlación entre cada uno de sus dominios y en la puntuación media global (tabla 3).

Dominios OSD-6	Sufrimiento físico	Alteración sueño	Alteración habla/deglución	Estrés emocional	Limitación actividad	Preocupación cuidador	Global
Sufrimiento físico	1	0.32	0.50	0.42	0.37	0.45	0.73
Alteración sueño	0.32	1	0.34	0.23	0.24	0.77	0.64
Alteración habla/deglución	0.50	0.34	1	0.34	0.32	0.58	0.74
Estrés emocional	0.42	0.23	0.34	1	0.55	0.30	0.68
Limitación actividad	0.37	0.24	0.32	0.55	1	0.27	0.65
Preocupación cuidador	0.45	0.77	0.57	0.30	0.27	1	0.78
Global	0.73	0.64	0.74	0.68	0.65	0.78	1

Tabla 3. Validez concurrente del cuestionario OSD-6 medida mediante coeficiente correlación de Pearson

En cuanto a la validez predictiva, el cuestionario diferencia adecuadamente la diferente gravedad cuando se mide según el grado de Mallampati: Grado 1 (n=3) 1.23 ± 1.18 ; Grado 2 (n=27) 3.4 ± 1.23 ; Grado 3 (n=23) 3.9 ± 1.32 ; Grado 4 (N=7) 3.3 ± 1.22 . Anova $p = 0.011$ (Tabla 4).

Mallampati	n	Media	SD
Grado 1	3	1,23	1,18
Grado 2	27	3,4	1,23
Grado 3	23	3,9	1,32
Grado 4	7	3,3	1,22

ANOVA Bonferroni p = 0,011

Tabla 4. Validez predictiva de OSD6 en relación con los grados de Mallampati

La diferenciación según el grado de IAH queda en el límite de la significación estadística: IAH normal (n=8), $2,64 \pm 1,60$, IAH 3-5 (N=7) $2,76 \pm 1,56$, IAH 5-10 (n=13), $3,7 \pm 1,33$, IAH>10; (n= 32), $3,8 \pm 1,2$ (ANOVA p=0.069).

Grado IAH	n	Media	SD
IAH normal	8	2,64	1,60
IAH 3-5 h ⁻¹	7	2,76	1,56
IAH 5-10 h ⁻¹	13	3,7	1,33
IAH > 10 h ⁻¹	32	3,8	1,2

ANOVA Bonferroni p = 0,069

Tabla 5. Validez predictiva de OSD6 en relación con la gravedad del AOS medido por el IAH

La sensibilidad al cambio fue excelente tanto en la puntuación global (p<0.001) como en cada uno de los dominios (p<0.001) (Tabla 6)

Dominios OSD-6	Pre-tto	Post-tto	p
Sufrimiento físico	4±2	1±1	0,001
Alteración sueño	5±2	1±2	0,001
Alt habla/deglución	3±2	1±1	0,001
Estrés emocional	3±2	1±1	0,001
Limitación Actividad	2±2	1±1	0,001
Preocupación cuidador	4±2	1±2	0,001
Global	21±8	6±6	0,001

Tabla 6. Sensibilidad al cambio del cuestionario OSD6

La fiabilidad test-retest fue asimismo excelente, tanto en el global como en cada dominio (Tabla 7).

Dominios OSD-6	CCI (IC 95%)
Sufrimiento físico	0.94 (0.92-0.96)
Alteración sueño	0.97 (0.93-0.99)
Alteración habla/deglución	0.89 (0.85-0.94)
Estrés emocional	0.85 (0.82-0.89)
Limitación actividad	0.91 (0.87-0.95)
Preocupación cuidador	0.79 (0.75-0.86)
Global	0.92 (0.89-0.95)

Tabla 7. Análisis de repetibilidad test-retest. CCI: Coeficiente correlación intraclase. IC: Intervalo de confianza.

DISCUSION

El concepto de salud en niños/as y adolescentes no sólo considera los aspectos físicos, psicológicos y sociales, sino también la habilidad para realizar actividades apropiadas para su edad. En el caso de los niños/as y adolescentes, las dimensiones que generalmente se tienen en cuenta están relacionadas con su capacidad para realizar actividades diarias (movilidad y cuidado personal), las adquisiciones cognitivas (memoria, habilidad para concentrarse y aprender), las emociones (positivas y negativas), la percepción de sí mismo, las relaciones interpersonales (con los amigos y familiares) y con el medio que los rodea (cohesión familiar, apoyo social). La mayoría

de los instrumentos de CVRS en edad pediátrica están concebidos según el modelo psicométrico que se basa en la capacidad del individuo para discernir entre estímulos de diferente intensidad recogiendo las respuestas en escalas (generalmente de tipo Likert).

En algunas unidades se emplea el *Pediatric Sleep Questionnaire*, desarrollado por la Universidad de Michigan, como screening previo de pacientes con AOS infantil, para evitar la PSG o como cuestionario de síntomas (18,19). Sin embargo, la versión española validada no parece que sea correcta en su dimensión de comportamiento diurno y somnolencia respecto al original, dimensiones que sin duda son de extraordinaria importancia en el AOS infantil (20).

OSD-6 ha sido validado en griego (21) y portugués de Brasil (22) y aunque también existe constancia de una serie de paciente intervenidos en India (23) que emplearon este cuestionario, no consta que se realizara una validación previa del mismo.

Asimismo, Diez-Montiel et al (24) presentan en 2006 una serie pediátrica evaluada mediante OSD6, sin embargo, en ese momento tampoco existía validación previa en español.

El cuestionario OSD-6 presenta una excelente consistencia interna. La validez predictiva es adecuada, la validez concurrente es moderada (si bien sería mejorable si los grupos de gravedad estuvieran más balanceados respecto al número, ya que hay una tendencia a una importante gravedad del AOS) y excelente la sensibilidad a los cambios post-tratamiento. Además, se ha observado que este cuestionario es un muy buen predictor al ser comparado con la escala de Mallampati y con la gravedad del AOS medida por el IAH.

Aunque los resultados del proceso de validación del OSD-6 sugieren que la versión española de este instrumento es equivalente a la versión original y por tanto puede ser empleada en países de habla hispana, consideramos necesario mencionar las limitaciones del mismo, como la sobrerrepresentación de los casos graves, ya que de manera prospectiva la mayoría de los niños que acuden a consulta ha sido valorados previamente por Otorrinolaringología o Pediatría, y por tanto la probabilidad de AOS grave es alta. En la práctica diaria, con el paso del tiempo se obtendría una distribución

más normalizada de la gravedad de los niños remitidos. Igualmente, es difícil encontrar niños sin AOS significativo ya que existe sesgo de muestra inicial con elevada probabilidad pretest de padecer la enfermedad.

Por otra parte, la principal fortaleza de nuestro trabajo es que se ha realizado siguiendo un proceso sistemático de validación de acuerdo a guías internacionales, obteniendo una versión en español equivalente a la original, en una muestra de niños estudiados mediante PSG (que se considera el *gold standard*) y sometidos a un protocolo uniforme de abordaje diagnóstico y terapéutico.

CONCLUSIONES

1. La elaboración de la versión española del cuestionario OSD-6 fue factible (objetivo primario)
2. La versión española posee capacidades psicométricas semejantes a la original (objetivo secundario).
3. El cuestionario adaptado se muestra sensible a los cambios post-tratamiento
4. El cuestionario validado puede presentar moderada capacidad de discriminación por nivel de gravedad.
5. El cuestionario validado puede obtener información importante acerca del impacto del AOS infantil, a través de los padres y cuidadores

BIBLIOGRAFIA.

1. Vaienti B, Di Blasio M, Arcidiacono L, Santagostini A, Di Blasio A, Segù M. A narrative review on obstructive sleep apnoea syndrome in paediatric population. *Front Neurol.* 2024 Jul 5;15:1393272.
2. Bergeron M, Duggins AL, Cohen AP, Ishman SL. Comparison of Patient- and Parent-Reported Quality of Life for Patients Treated for Persistent Obstructive Sleep Apnea. *Otolaryngol Head Neck Surg.* 2018 Oct;159(4):789-795.
3. Chiner E, Sancho-Chust JN, Pastor E, Esteban V, Boira I, Castelló C, Celis C, Vañes S, Torba A. Features of Obstructive Sleep Apnea in Children with and without Comorbidities. *J Clin Med.* 2023 Mar 21;12(6):2418.
4. Kubba H, Swan IR, Gatehouse S. The Glasgow Children's Benefit Inventory: a new instrument for assessing health-related benefit after an intervention. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2004 Dec;113(12):980-6.
5. Edwards TC, Huebner CE, Connell FA, Patrick DL. Adolescent quality of life, part I: conceptual and measurement model. *J Adolesc.* 2002 Jun;25(3):275-86.
6. Chiner E, Cánovas C, Molina V, Sancho-Chust JN, Vañes S, Pastor E, Martínez-García MA. Home Respiratory Polygraphy is Useful in the Diagnosis of Childhood Obstructive Sleep Apnea Syndrome. *J Clin Med.* 2020 Jul 1;9(7):2067.
7. Wild D, Grove A, Martin M, Eremenco S, McElroy S, Verjee-Lorenz A, Erikson P; ISPOR Task Force for Translation and Cultural Adaptation. Principles of Good Practice for the Translation and Cultural Adaptation Process for Patient-Reported Outcomes (PRO) Measures: report of the ISPOR Task Force for Translation and Cultural Adaptation. *Value Health.* 2005 Mar-Apr;8(2):94-104.
8. de Serres LM, Derkay C, Astley S, Deyo RA, Rosenfeld RM, Gates GA. Measuring quality of life in children with obstructive sleep disorders. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2000 Dec;126(12):1423-9.
9. Chiner E, Landete P, Sancho-Chust JN, Martínez-García MÁ, Pérez-Ferrer P, Pastor E, Senent C, Arlandis M, Navarro C, Selma MJ. Adaptation and Validation of the Spanish Version of OSA-18, a Quality of Life Questionnaire for Evaluation

- of Children with Sleep Apnea-Hypopnea Syndrome. *Arch Bronconeumol*. 2016 Nov;52(11):553-559.
10. Hogg ES, Hampton T, Wright K, Sharma SD. The effect on the T-14 paediatric throat disorders outcome score of delaying adenotonsillectomy surgery due to COVID-19. *Ann R Coll Surg Engl*. 2023 Aug;105(S2):S18-S21.
 11. Hernández A, Hidalgo MD, Hambleton RK, Gómez-Benito J. International Test Commission guidelines for test adaptation: A criterion checklist. *Psicothema*. 2020 Aug;32(3):390-398.
 12. Guillemin F, Bombardier C, Beaton D. Cross-cultural adaptation of health-related quality of life measures: literature review and proposed guidelines. *J Clin Epidemiol*. 1993 Dec;46(12):1417-32.
 13. Brislin RW. The wording and translation of research instruments. En: Lonner WJ, Berry W, editors. *Field methods in cross-cultural research*. Beverly Hills, CA: Sage Publications; 1986. p. 137–64
 14. Fleiss JL. *The Design and Analysis of Clinical Experiments*. New York: Wiley;1986
 15. Llombart M, Chiner E, Gómez-Merino E, Andreu A, Pastor E, Senent C, Camarasa A, Signes-Costa J. Síndrome de apneas-hipopneas durante el sueño en población infantil: diferencias en su expresión entre niños con hipertrofia amigdalar y con enfermedad concomitante [Sleep apnea-hypopnea syndrome in a pediatric population: differences between children with tonsillar hypertrophy and those with concomitant disease]. *Arch Bronconeumol*. 2007 Dec;43(12):655-61. Spanish.
 16. Chiner E, Sancho-Chust JN, Pastor E, Esteban V, Boira I, Castelló C, Celis C, Vañes S, Torba A. Features of Obstructive Sleep Apnea in Children with and without Comorbidities. *J Clin Med*. 2023 Mar 21;12(6):2418.
 17. Liistro G, Rombaux P, Belge C, Dury M, Aubert G, Rodenstein DO. High Mallampati score and nasal obstruction are associated risk factors for obstructive sleep apnoea. *Eur Respir J*. 2003 Feb;21(2):248-52.
 18. Chervin RD, Hedger K, Dillon JE, Pituch KJ. Pediatric sleep questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep-disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems. *Sleep Med*. 2000 Feb 1;1(1):21-32.

19. Tomás Vila M, Miralles Torres A, Beseler Soto B. Versión española del Pediatric Sleep Questionnaire . Un instrumento útil en la investigación de los trastornos del sueño en la infancia. Análisis de su fiabilidad. An Pediatr (Barc). 2007;66(2):121–8.
20. de Terán TD, Boira I, Muñoz P, Chiner E, Esteban V, González M. Reliability of the Paediatric Sleep Questionnaire in Patients Referred for Suspected Obstructive Sleep Apnea. Arch Bronconeumol. 2024 Jul 20:S0300-2896(24)00274-6. English, Spanish.
21. Lachanas VA, Mousailidis GK, Skoulakis CE, Papandreou N, Exarchos S, Alexopoulos EI, Bizakis JG. Validation of the Greek OSD-6 quality of life questionnaire in children undergoing polysomnography. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2014 Aug;78(8):1342-7.
22. Cavalheiro MG, Corrêa CC, Maximino LP, Weber SAT. Sleep quality in children: questionnaires available in Brazil. Sleep Sci. 2017 Oct-Dec;10(4):154-160
23. Moideen SP, G M D, Sheriff RM, James F. Effectiveness of Adenoidectomy as a Standalone Procedure in Improving the Quality of Life of Children with Obstructive Sleep Apnea. Indian J Otolaryngol Head Neck Surg. 2024 Jun;76(3):2344-2350.
24. Díez-Montiel A, de Diego JI, Prim MP, Martín-Martínez MA, Pérez-Fernández E, Rabanal I. Quality of life after surgical treatment of children with obstructive sleep apnea: long-term results. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2006 Sep;70(9):1575-9.

ANEXOS

Anexo 1. Versión original OSD-6

Impact of Obstructive Sleep Disorders on Child Quality of Life
 Please help us understand the impact of enlarged tonsils and adenoids on your child's sleep-related quality of life. Please circle any symptom(s) that affect your child as well as the number that describes the severity of the problem for each question below.

Problem List: **Problem Scale**
(Circle Best Answer Below):

	None	Hardly at All	Somewhat	Moderate	Quite a Bit	Very Much Couldn't Be Worse
	0	1	2	3	4	5 6

1. Physical Suffering:
 For example: Sore throat, dry throat, nasal congestion, completely blocked nose, bedwetting, excessive daytime tiredness, failure to gain weight, bad breath.
Overall, how much has physical suffering been a problem for your child during the past 4 weeks because of enlarged tonsils and adenoids?

2. Sleep Disturbance:
 For example: Snoring, choking/gasping for air, stopping breathing for a few seconds, restless sleep, difficult to awaken from sleep, chest caving in with breathing.
Overall, how much has sleep disturbance been a problem for your child during the past 4 weeks because of enlarged tonsils and adenoids?

3. Speech or Swallowing Problems:
 For example: Difficulty swallowing certain foods, choking on foods, muffled speech, nasal sounding speech, poor pronunciation.
Overall, how much has speech or swallowing been a problem for your child during the past 4 weeks because of enlarged tonsils and adenoids?

4. Emotional Distress:
 For example: Irritable, frustrated, sad, restless, poor appetite, can't pay attention, child made fun of because of snoring.
Overall, how much of a problem has emotional distress been for your child during the past 4 weeks because of enlarged tonsils and adenoids?

5. Activity Limitations:
 For example: Playing, participating/excelling at sports, doing things with friends/family, attending school or day care.
Overall, how much have your child's activities been limited during the past 4 weeks because of enlarged tonsils and adenoids?

6. Caregiver Concerns:
Have you, as a caregiver, been worried, concerned, or inconvenienced because of your child's snoring and difficulty breathing at night during the past 4 weeks?

Anexo 3. Cuestionario de recogida de datos

SERVICIO NEUMOLOGÍA Y UNIDAD MULTIDISCIPLINAR DE SUEÑO HOSPITAL UNIVERSITARIO SAN JUAN DE ALICANTE

PROTOCOLO RECOGIDA DE DATOS SAHS INFANTIL

- **FECHA ESTUDIO:**
- **NOBRE Y APELLIDOS:**
- **NHC:**
- **EDAD:**
- **SEXO:**

- **ENFERMEDAD CONCOMITANTE:**

- **PROCEDENCIA:**
 - NEUMOLOGÍA
 - ORL
 - NEURÓLOGO
 - PEDIATRA
 - MXF
 - OTROS:

- **INDICACIÓN:**

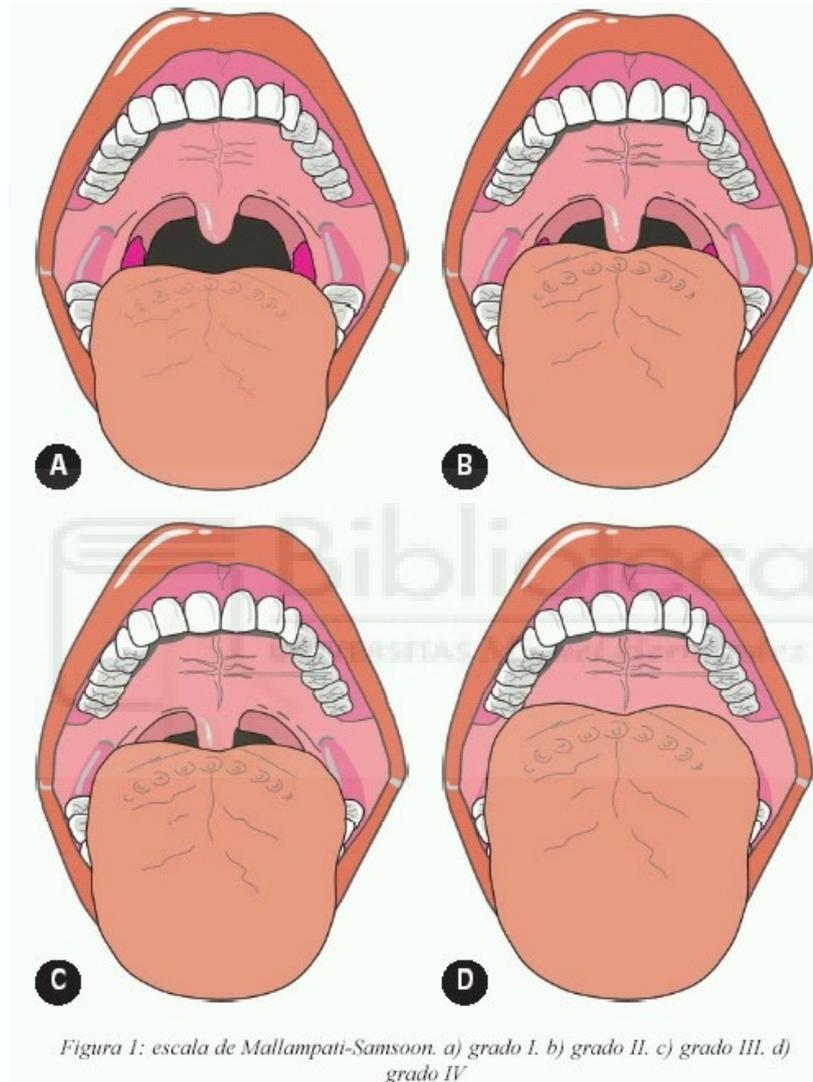
- **CLÍNICA:**
 - RONQUIDOS
 - APNEAS
 - RESPIRACIÓN DIFÍCULTOSA
 - SUEÑO INQUIETO
 - RINORREA CRÓNICA
 - OBSTRUCCIÓN NASAL
 - RESPIRACIÓN BUCAL DIURNA
 - INFECCIONES DE VÍAS ALTAS
 - VÓMITOS Y NÁUSEAS
 - DEGLUCIÓN DIFÍCULTOSA
 - SUDORACIÓN NOCTURNA
 - PROBLEMAS AUDITIVOS
 - SOMNOLENCIA DIURNA
 - MAL APETITO
 - OTITIS MEDIA SUPURADA FRECUENTE
 - TIMIDEZ
 - HIPERACTIVIDAD/FALTA
ATENCIÓN
 - BAJO RENDIMIENTO ESCOLAR
 - ENURESIS/POLAQUITURIA
 - CEFALEA
 - PIROSIS
 - SIBILANCIAS
 - OTROS:

-
- **EXPLORACIÓN FÍSICA:**
 - HIPERTROFIA AMIGDALAR
 - HIPERTROFIA ADENOIDEA
 - PALADAR OJIVAL
 - MACROGLOSIA
 - ALTERACIÓN MACIZO FACIAL
 - MICROGNATISMO
 - PROGNATISMO
 - RETROGNATISMO
 - MALOCCLUSIÓN DENTAL
 - DOLICOCEFALIA
 - OBESIDAD
 - AMIGDALECTOMÍA PREVIA
 - OTROS:
 - **VARIABLES ANTROPOMÉTRICAS:**
 - PESO:
 - TALLA:
 - BMI:
 - PC:
 - **MÉTODO:**
 - PSG
 - PCR
 - DOMICILIARIA
 - HOSPITALARIA
 - OXIMETRÍA
 - **DIAGNÓSTICO:**
 - SAHS
 - HIPOVENTILACIÓN
 - SRAVAS
 - **RESULTADOS (ADJUNTAR COPIA DE LA EXPLORACIÓN):**
 - RDI:
 - ODI:
 - Tc90:
 - **SEVERIDAD:**
 - SEVERO (RDI > 10)
 - MODERADO (RDI 5-10)
 - LEVE (RDI 3-5)
 - **ACTITUD TERAPÉUTICA:**
 - AMIGDALECTOMÍA
 - ADENOIDECTOMÍA
 - CPAP
 - BIPAP
 - CIRUGÍA MAXILAR
 - SEPTOPLASTIA
 - MEDIDAS HIGIÉNICO-DIETÉTICAS
 - OTROS:

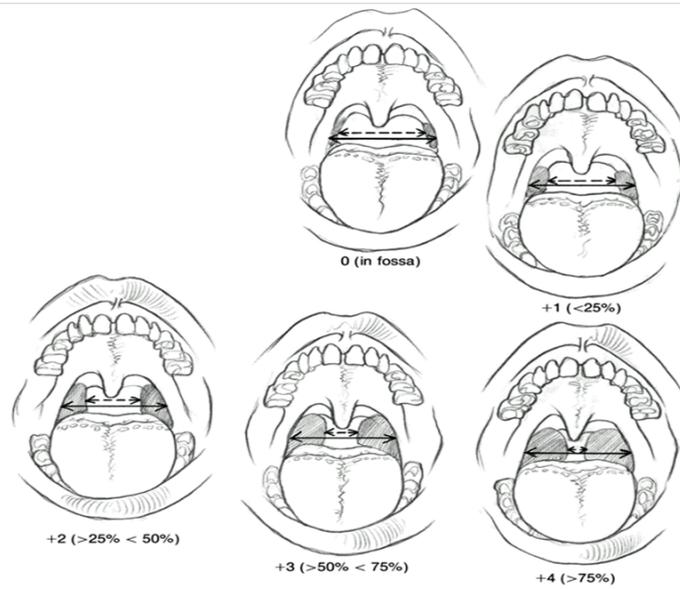
- **TOLERANCIA DE VMNI**
 - BUENA
 - REGULAR
 - MALA/RECHAZO
- **TÉCNICA DE COMPROBACIÓN TRAS TRATAMIENTO**
 - PSG
 - PCR
 - OXIMETRÍA
- **RESULTADOS (ADJUNTAR COPIA DE LA EXPLORACIÓN):**
 - RDI:
 - ODI:
 - Te90:
- **EVOLUCIÓN:**
 - CURACIÓN
 - MEJORÍA
 - PERSISTENCIA
 - ÉXITUS



Anexo 4. Escala de Mallampati



Anexo 5. Escala de Brodski (grados de hipertrofia amigdalina).



Esta clasificación se basa en la medida del radio comprendido entre la tonsila y la orofaringe:
Grado 1: Menor de 25 % de la luz faríngea
Grado 2: Hipertrofia entre 25 y 50 % de la luz faríngea
Grado 3: Hipertrofia amigdalina entre 50 a 75 % de la luz faríngea
Grado 4: Contactan en la línea media



Anexo 6. Consentimiento informado

ANEXO INFORMACION AL PACIENTE

HOJA DE CONSENTIMIENTO INFORMADO

Validación de los Cuestionarios de calidad de vida OSA-18 y OSD-6

Usted ha sido invitado como padre/madre/cuidador a participar en una investigación sobre calidad de vida en niños diagnosticados de síndrome de apnea obstructiva del sueño. Esta investigación es realizada por el equipo de neumología del Hospital U. San Juan de Alicante.

El propósito de esta investigación es la validación de dos cuestionarios sobre la calidad de vida en niños con síndrome de apnea obstructiva del sueño, para su posterior aplicación.

Si acepta participar se le solicitará que conteste algunos cuestionarios que le indicará su especialista y probablemente se le solicitará que los conteste de nuevo en caso de que haya que aplicarle un tratamiento a su hijo/hija, generalmente consistente en la intervención de amígdalas (anqinas) y/o adenoides (vegetaciones)

Este estudio no conlleva riesgo alguno asociado.

La identidad del participante será protegida y los datos se utilizarán únicamente a nivel estadístico. Solamente las personas incluidas en este estudio tendrán acceso a los datos. Estos datos serán almacenados en un soporte informático para sacar conclusiones estadísticas. Estas recomendaciones se ajustan a la Ley 15/1999 de Protección de datos de carácter personal.

Si ha leído este documento y ha decidido participar, por favor entienda que su participación es completamente voluntaria y que usted tiene derecho a abstenerse de participar o retirarse del estudio en cualquier momento, sin ninguna penalidad. También tiene derecho a no contestar alguna pregunta en particular. Además tiene derecho a recibir una copia de este documento

Su firma en este documento significa que ha decidido participar después de haber leído la información presentada en esta hoja de consentimiento

Firma

Fecha

Firma del investigador o persona designada

Fecha