



UNIRIO - Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro

Centro de Ciências Biológicas e da Saúde (CCBS)

Escola de Medicina e Cirurgia (EMC)

Trabalho de Conclusão de Curso

**ESPIRITUALIDADE E BEM ESTAR ENTRE CUIDADORES DE PACIENTES
DUCHENNE: REVISÃO DE LITERATURA**

Aluno: **Paulo Vinicius Camilo da Silva**

Orientadora: **Ana Paula Cassetta**

Rio de Janeiro

2024

PAULO VINICIUS CAMILO DA SILVA

**ESPIRITUALIDADE E BEM ESTAR ENTRE CUIDADORES DE PACIENTES
DUCHENNE: REVISÃO DE LITERATURA**

Trabalho de Conclusão do Curso apresentado como requisito parcial para obtenção do grau de médico no Curso de Medicina na Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro - UNIRIO.

Orientadora: Prof. Ana Paula Cassetta

RIO DE JANEIRO

2024

PAULO VINICIUS CAMILO DA SILVA

**ESPIRITUALIDADE E BEM ESTAR ENTRE CUIDADORES DE PACIENTES
DUCHENNE: REVISÃO DE LITERATURA**

Trabalho de Conclusão do Curso apresentado como requisito parcial para obtenção do grau de médico no Curso de Medicina na Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro - UNIRIO e aprovado pela banca examinadora.

Rio de Janeiro, de MARÇO de 2024

BANCA EXAMINADORA

Prof. Dr.: Júlio Tolentino - HUGG/UNIRIO

Prof^a. Dr^a.: Ana Lucia Taboada - HUGG/UNIRIO

Prof^a. Fernanda Batista - HUGG/UNIRIO

AGRADECIMENTOS

Gostaria de expressar minha sincera gratidão, primeiramente à minha mãe Nargila, minha grande heroína que foi e é o maior presente que poderia pedir a Deus. Por ter sido a minha maior torcedora, me colocando em todas as batalhas sabendo que poderia vencer. Que perseverou e não abriu mão dos meus estudos, minha felicidade e meu bem-estar independentemente das condições desfavoráveis que tentaram nos sobrepujar.

Ao meu pai Antonio, expresso minha profunda gratidão por ser um símbolo de força e coragem em minha vida. Sua capacidade de me desafiar e insistir para que eu me levantasse a cada queda foi fundamental em meu crescimento. Sua presença ao meu lado, sempre me lembrando do meu potencial e incentivos a ir além, é inestimável.

Ao meu irmão Thor, meus primos Danilo, Talison e Diego, e aos meus amigos Gabriel, Leonardo, Locatelli e Pedro, por serem grandes amigos e companheiros de vida. Obrigado por sempre estarem por perto e permitirem que eu pudesse continuar sendo leve e alegre, e pela paciência nos últimos anos diante da minha ausência para chegar até aqui.

À minha namorada Gabriela, agradeço intensamente por ter entrado na minha vida e desde então se tornado minha grande companheira, mostrando que o cuidado e carinho são capazes de colorir qualquer alma. Serei eternamente grato pelas coincidências do destino que cruzaram nossos caminhos. Te amo e estamos prestes a comemorar essa vitória juntos.

Expesso minha profunda gratidão aos grandes amigos que pude conhecer e com quem compartilhei experiências incríveis durante a faculdade. Sem vocês, esses 6 anos não teriam sido únicos e maravilhosos. Lembrarei para sempre e continuarei acompanhando de perto as grandes conquistas individuais de cada um.

Um agradecimento especial à Prof^a Ana Paula por ter me apresentado esse grande desafio e me orientado com maestria. Minha gratidão se estende também a toda a banca examinadora. Ao Prof. Júlio, sua paciência e didática na exploração do tema foram pilares fundamentais para chegar até aqui. À Prof^a Ana Lúcia e à Prof^a Fernanda Batista, obrigado por aceitarem participar da avaliação do meu trabalho de conclusão de curso, é uma grande honra.

RESUMO

A distrofia muscular de Duchenne (DMD) é caracterizada por uma doença neuromuscular recessiva ligada ao cromossomo X, causando degeneração muscular progressiva que geralmente se inicia na infância. O manejo dessa condição apresenta desafios consideráveis e demanda apoio constante de familiares ou cuidadores. Uma compreensão aprofundada da relação entre a espiritualidade e o bem-estar dos cuidadores familiares é essencial para identificar novas estratégias de enfrentamento, assim como para auxiliar no entendimento do processo de adaptação familiar. A espiritualidade está associada à capacidade de antecipação da resiliência e fomenta adaptações positivas em face de desafios. A correlação entre bem-estar espiritual, bem-estar subjetivo, resiliência e crescimento pós-traumático enfatiza a influência positiva da espiritualidade na adaptação e na capacidade de enfrentamento dos cuidadores de pacientes com Duchenne, assim como a esperança desempenha um papel importante na avaliação da incerteza e na adaptação a condições médicas e apresenta correlações positivas entre esperança e espiritualidade, bem como uma correlação negativa entre esperança e incerteza. Esses resultados ressaltam a importância de abordagens que reconheçam a dimensão espiritual no cuidado e no apoio aos cuidadores. Em resumo, existe uma relação positiva entre a espiritualidade e o bem-estar dos cuidadores familiares de pacientes com Distrofia Muscular de Duchenne (DMD), enfatizando o papel crucial da espiritualidade na adaptação familiar e na capacidade de enfrentamento, necessitando de investigações longitudinais abrangentes para compreender o papel causal da espiritualidade, além da sua dinâmica em diferentes momentos como hospitalizações e surgimento de novas doenças associadas à condição de distrofinopatias.

Palavras-chave: distrofia muscular de duchenne, bem estar familiar, cuidadores, espiritualidade, adaptação familiar, enfrentamento

ABSTRACT

Duchenne muscular dystrophy (DMD) is characterized by a recessive X-linked neuromuscular disorder causing progressive muscle degeneration typically starting in childhood. Managing this condition presents considerable challenges and requires constant support from family members or caregivers. A thorough understanding of the relationship between spirituality and the well-being of family caregivers is essential to identify new coping strategies and aid in understanding the family adaptation process. Spirituality is associated with anticipatory resilience and fosters positive adaptations to challenges. The correlation between spiritual well-being, subjective well-being, resilience, and post-traumatic growth emphasizes the positive influence of spirituality on the adaptation and coping ability of caregivers of Duchenne patients, while hope plays a significant role in assessing uncertainty and adapting to medical conditions, with positive correlations between hope and spirituality and a negative correlation between hope and uncertainty. These findings underscore the importance of approaches that acknowledge the spiritual dimension in caregiver care and support. In summary, there is a positive relationship between spirituality and the well-being of family caregivers of Duchenne Muscular Dystrophy (DMD) patients, emphasizing the crucial role of spirituality in family adaptation and coping, requiring comprehensive longitudinal investigations to understand the causal role of spirituality, as well as its dynamics at different times such as hospitalizations and the emergence of new conditions associated with dystrophinopathies.

Keywords: Duchenne muscular dystrophy, family well-being, caregivers, spirituality, family adaptation, coping

LISTA DE TABELAS

1. Descrição sucinta dos estudos revisados36
2. Identificação dos temas principais dos estudos revisados: 37

LISTA DE ABREVIATURAS E SIGLAS

HUGG – Hospital Universitário Gaffrée e Guinle

DMD – Distrofia Muscular de Duchenne

DMBD – Distrofia Muscular de Becker e Duchenne

FQoL – Qualidade de Vida Familiar

PUCHs – Escala de Incerteza dos Pais sobre a Saúde das Crianças

PHS – Escala de Esperança dos Pai

DSES – Escala de Experiência Espiritual Diária

CSES – Escala de Autoeficácia de Enfrentamento

SWBQ – Questionário de Bem-Estar Espiritual

SWLSp – Escala de Satisfação com a Vida

PANAS – Escala de Afetos Positivos e Negativos

PTGI – Inventário de Desenvolvimento Pós-Traumático

FACIT-Sp – Escala de Bem-Estar Espiritual da Avaliação Funcional da Terapia de Doenças Crônicas

SUMÁRIO

1.	INTRODUÇÃO.....	9
1.1.	DISTROFIA MUSCULAR DE DUCHENNE.....	9
1.2.	PAPEL DO CUIDADOR.....	10
1.3.	RELIGIOSIDADE E ESPIRITUALIDADE.....	11
1.4.	DOENÇA CRÔNICA.....	12
1.5.	DOENÇA CRÔNICA E ESPIRITUALIDADE NO DESENVOLVIMENTO.....	13
2.	OBJETIVOS.....	14
3.	METODOLOGIA.....	15
4.	RESULTADOS.....	17
4.1.	ADAPTAÇÃO FAMILIAR.....	23
4.2.	CAPACIDADE DE ENFRENTAMENTO.....	25
5.	DISCUSSÃO.....	27
5.1.	LIMITAÇÕES.....	28
6.	CONCLUSÃO.....	29
7.	REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS.....	30

1. INTRODUÇÃO

1.1. Distrofia Muscular de Duchenne

A distrofia muscular de Duchenne (DMD) é uma rara condição neuromuscular de herança recessiva ligada ao cromossomo X, caracterizada pela progressiva perda de função muscular. Esta doença se manifesta na infância e, apesar das intervenções que prolongam a expectativa de vida, frequentemente resulta em óbito na faixa dos 30 anos (1,2). Doenças crônicas como a DMD demandam cuidados e tratamentos em curso, muitas vezes por um período indefinido, e podem levar as crianças afetadas a restrições em atividades, dor crônica, angústia psicológica e atrasos no desenvolvimento. Frequentemente, hospitalizações, consultas médicas e tratamentos são necessários, tornando essencial a presença constante de um membro da família ou cuidador para oferecer assistência (3,4).

1.2. PAPEL DO CUIDADOR

Ao longo do curso da doença, o cuidador ou familiar da criança se torna uma fonte de proteção e apoio indispensável em todas as fases da doença. No entanto, devido ao peso das responsabilidades e à necessidade de estar presente constantemente, o cuidador pode experimentar sentimentos de estresse, revolta e tristeza (5,6). A adaptação psicológica dos pais de crianças com DMD é influenciada também pela incerteza inerente à evolução da doença, pelas mudanças na prestação de cuidados e pelas perdas contínuas que tanto as crianças quanto os pais enfrentam conforme a doença progride (7). Contudo, conforme demonstrado por diversos estudos em outros contextos (8-10), após o impacto inicial do diagnóstico da doença e eventos significativos, como hospitalizações, podem surgir reações positivas como a resiliência e esperança, que servem como estratégia de enfrentamento para lidar com a aceitação da doença e suas muitas consequências.

Os aspectos positivos de cuidar de uma criança com deficiência envolvem diversas dimensões. Isso inclui fortalecer os laços familiares, ganhar uma apreciação mais profunda pela vida, cultivar resistência espiritual e desenvolver níveis elevados de autoconsciência, confiança, força e coragem para enfrentar novos desafios (11-14). Em uma pesquisa realizada com famílias que lidam com a DMD em Taiwan, os pais que tinham práticas religiosas ou espirituais demonstraram ter níveis mais baixos de estresse (15).

1.3. RELIGIOSIDADE E ESPIRITUALIDADE

Quando se trata de questões religiosas e espirituais, uma das principais preocupações é fornecer uma conceptualização clara de religiosidade e espiritualidade e determinar se são construtos relacionados ou distintos (16). Em termos gerais, a religiosidade pode ser definida como a adesão pública ou privada a crenças, rituais e práticas religiosas, enquanto a espiritualidade pode ser definida como a busca individual por significado na vida, por uma conexão pessoal com realidades transcendentais e por interconexão com algo maior do que o Eu (17,18).

No que diz respeito às suas relações recíprocas, a religiosidade e a espiritualidade têm sido frequentemente consideradas como construções diferentes, mas sobrepostas, compartilhando referência ao sagrado, que engloba o divino, o transcendente, ou qualquer aspecto da vida que os indivíduos percebem como imbuído de caráter espiritual/divino (17,19,20). Curiosamente, a espiritualidade tem sido considerada como um fenômeno que diz respeito a todos os indivíduos, independentemente de sua filiação religiosa, enquanto a religiosidade é vista como um dos contextos possíveis em que as inclinações espirituais de alguém podem ser expressas (21,22,23). Vale ressaltar que, em suas experiências vividas de religiosidade e espiritualidade, os indivíduos podem se descrever como espirituais e religiosos, espirituais mas não religiosos, religiosos mas não espirituais, ou nem religiosos nem espirituais, de acordo com os significados atribuídos a esses termos (24).

A maioria das revisões de literatura integrativas publicadas sobre espiritualidade se concentra em pacientes idosos, doentes ou em cuidados paliativos, com muito poucas se concentrando nos cuidadores familiares, especialmente em torno dos cuidados de pacientes pediátricos ou adultos jovens. Além disso, a maioria dos estudos existentes sobre cuidadores familiares explora suas experiências físicas, psicológicas, emocionais e socioeconômicas, em vez de sua espiritualidade ou experiências espirituais enquanto oferece suporte ao seu familiar (25).

1.4. DOENÇA CRÔNICA

De forma intuitiva, o termo "crônico" identifica uma condição médica contínua (26), mas os estudiosos têm debatido amplamente sobre quanto tempo tal condição deve durar para ser considerada permanente ou persistente (27). Para isso, os intervalos de tempo frequentemente adotados para categorizar uma doença como crônica são de 3, 6 ou 12 meses (28), e também diferem de acordo com o tipo de transtorno (29). Além da duração, "crônico" também se refere à recorrência, outra característica que distingue uma doença em curso de uma aguda (28). De fato, uma doença aguda tem um ciclo específico - início, manifestação de sinais/sintomas e recuperação - enquanto uma doença crônica, como a DMD, continua indefinidamente, é insidiosa, piora ou permanece em remissão por um longo período (30). Resumidamente, as doenças agudas podem ser curáveis, enquanto as crônicas não o são (29).

De acordo com a Organização Mundial da Saúde (26), as condições crônicas englobam uma variedade de transtornos, incluindo transtornos mentais, neurológicos e relacionados ao uso de substâncias (como depressão, esquizofrenia e epilepsia); doenças não transmissíveis, como doenças cardiovasculares, diabetes, câncer, distúrbios crônicos respiratórios e distúrbios sensoriais, digestivos e musculoesqueléticos; e doenças transmissíveis, como HIV/AIDS, tuberculose e hepatite viral. No entanto, além de qualquer taxonomia possível e exaustiva, deve-se ter em mente que uma doença crônica impacta significativamente a qualidade de vida dos pacientes e familiares, podendo prejudicar suas funções, atividades diárias e papéis sociais; aumentar a necessidade de cuidados médicos e uso de tecnologia médica; e exigir adaptações e assistência frequente dos cuidadores familiares (27).

1.5. DOENÇA CRÔNICA E ESPIRITUALIDADE NO DESENVOLVIMENTO

A espiritualidade pode contribuir para o funcionamento psicossocial e o bem-estar dos jovens com doenças crônicas por razões gerais e específicas. Primeiramente, considerações teóricas e evidências empíricas, também relacionadas aos avanços do desenvolvimento dos jovens (como aumento da capacidade de pensamento abstrato), mostraram que a espiritualidade pode fornecer aos jovens contextos ideológicos, sociais e transcendentais que oferecem perspectivas, redes de apoio e um sentido de conexão com algo maior que pode ajudá-los a tomar consciência de sua singularidade e encontrar significado e propósito (32). Em segundo lugar, como os jovens com doenças crônicas estão mais frequentemente confrontados com incertezas sobre o futuro, finitude da vida, fardos psicológicos e experiências negativas, crenças e valores espirituais podem especificamente ajudá-los a encontrar significado na vida e respostas para questões existenciais cruciais (31).

Interessantemente, apesar da existência de estudos que evidenciam como a espiritualidade exerce influências bem estabelecidas na saúde mental e física dos jovens, bem como em seu desenvolvimento (33,34), a lista de estudos, embora sugiram uma ligação entre espiritualidade e qualidade de vida dos cuidadores em vários contextos (25), ainda apresentam uma lacuna significativa de pesquisa quando se trata de entender como a espiritualidade influencia a capacidade de enfrentamento e adaptação entre os cuidadores de pacientes Duchenne.

Uma revisão narrativa foi utilizada para orientar a análise da literatura teórica e empírica a fim de gerar uma compreensão abrangente dos fenômenos de interesse - especificamente a relação da espiritualidade com o bem-estar entre os cuidadores familiares de pessoas portadoras de Duchenne.

2. OBJETIVOS

Este estudo busca descrever e avaliar a literatura existente entre espiritualidade e cuidadores de familiares portadores de DMD, identificar correlações e a contribuição das experiências espirituais na qualidade de vida dos cuidadores através da capacidade de enfrentamento e adaptação. O intuito é fornecer análises que possam orientar futuras pesquisas, práticas clínicas e políticas de cuidados para pacientes com DMD.

3. METODOLOGIA

O presente artigo tem como método a revisão narrativa. Realizou-se uma busca abrangente na literatura publicada nas bases de dados incluindo *PubMed* e *Google Scholar*. Os termos de pesquisa foram selecionados com base nos objetivos do estudo e incluíram artigos com as palavras-chave: “espiritualidade”, “cuidadores” e “Distrofia Muscular de Duchenne”.

Para os propósitos desta revisão, a espiritualidade é definida como um componente da experiência humana relacionado à busca e expressão de significado e propósito, assim como à percepção do que é sagrado ou significativo na vida (35), e o cuidador familiar é definido como aqueles que fornecem uma gama de cuidados físicos, sociais, psicológicos, emocionais e espirituais para indivíduos doentes, incluindo pais, cônjuges, filhos, amigos e parentes próximos (36).

Os critérios de inclusão estabelecidos foram definidos para delinear os tipos de estudos e os requisitos necessários para sua seleção. Foram considerados para inclusão os artigos que examinaram direta ou indiretamente a relação entre espiritualidade e o bem-estar dos cuidadores de pacientes com DMD. Estudos que investigaram a espiritualidade em outros contextos clínicos, como doenças crônicas e cuidados paliativos, foram utilizados para contextualizar a importância do estudo, mas foram excluídos da análise de resultados. Artigos que não exploraram profundamente o tema da espiritualidade ou apenas fizeram menção superficial a ele não foram incluídos na pesquisa.

Oito estudos foram identificados como relevantes para a pesquisa. Após uma revisão abrangente dos textos e uma avaliação da qualidade metodológica, três artigos foram selecionados para a revisão final e análise. Os

resultados de cada artigo foram resumidos e organizados em uma tabela para facilitar a visualização e uma análise de conteúdo foi conduzida para identificar os principais temas emergentes. Além disso, uma tabela de síntese descritiva foi elaborada para apresentar as descrições textuais dos resultados encontrados nos estudos selecionados.

Os três artigos selecionados foram submetidos a uma análise crítica visando identificar temas recorrentes, padrões emergentes e resultados relevantes relativos à espiritualidade entre os cuidadores de pacientes com DMD. A análise dos dados seguiu uma abordagem narrativa, permitindo a extração de informações significativas e a resposta à pergunta de pesquisa. A pesquisa não se restringiu a nenhuma região geográfica, cultura, religião, grupo étnico ou faixa etária, visando uma compreensão abrangente da espiritualidade entre os cuidadores familiares.

Os resultados da revisão foram sintetizados e apresentados de forma clara e organizada, destacando as principais descobertas, tendências e correlações encontradas na literatura sobre espiritualidade entre os cuidadores de pacientes com DMD, focando na relação da espiritualidade à adaptação familiar e capacidade de enfrentamento dos cuidadores familiares.

4. RESULTADOS

O tamanho da amostra dos três estudos variou de 127 a 209 cuidadores familiares, dependendo do design de pesquisa de cada estudo. A população-alvo em todos os estudos foram os cuidadores de pacientes portadores de distrofinopatias. Esta revisão focou em descobertas relacionadas à espiritualidade ou experiências espirituais de cuidadores familiares apenas.

Dos 3 artigos, nenhum especificou a espiritualidade ou experiências espirituais como foco único e central de seu estudo, mas incluíram isso como uma das muitas experiências entre os cuidadores familiares. A espiritualidade foi definida apenas em 1 dos 3 artigos. Isso introduziu um desafio com relação à dedução do significado da espiritualidade nesses estudos.

Foi realizada a descrição sucinta dos artigos selecionados e disponibilizada sua síntese na Tabela 1 em ordem cronológica, incluindo título, autor e local do estudo; objetivo do estudo; design de pesquisa; amostra; descobertas e implicações clínicas. A revisão narrativa identificou dois temas principais: capacidade de enfrentamento e adaptação familiar (Tabela 2).

Tabela 1: Descrição sucinta dos estudos revisados

Tabela 1. Resumo dos 03 estudos revisados (listados em ordem cronológica)						
#	Autor e título de artigo	Propósito	Desenho, amostra e método de coleta de dados	Definição de espiritualidade	Conclusão	Limitações
1	Frishman, Natalia; Conway, Kristin Caspers; Andrews, Jennifer; Oleson, Jacob; Mathews, Katherine; Ciafaloni, Emma; Oleszek, Joyce; Lamb, Molly; Matthews, Dennis; Paramsothy, Pangaja; McKirgan, Lowell; Romitti, Paul (2017). Perceived quality of life among caregivers of children with a childhood-onset dystrophinopathy: a double ABCX model of caregiver stressors and perceived resources. Health and Quality of Life Outcomes.	Orientar clínicos e famílias na avaliação de recursos que possam ajudar a minimizar o estresse e maximizar a capacidade da família de se adaptar ao cuidado de um membro afetado por uma distrofia muscular de início na infância.	Corte transversal, quantitativa, com análises bivariadas e multivariadas e examinaram as associações entre as variáveis do estudo usando o modelo Double ABCX como estrutura analítica.	Ausente	Adaptação dos cuidadores ao diagnóstico de uma distrofia pode ser otimizada através do aumento do controle percebido, apoio aos recursos familiares e criação de uma identidade familiar saudável. Os achados ajudarão a identificar áreas para intervenção familiar e orientar os clínicos na identificação de recursos que minimizem o estresse e maximizem a adaptação familiar.	<ul style="list-style-type: none"> • Amostra mais educada do que a população geral, limitando a generalização. • Viés de fonte única devido aos cuidadores relatarem todas as medidas. • Ausência de consideração para múltiplos respondentes em cada família. • Estressores podem afetar membros familiares de forma diferente. • Falta de coleta de informações sobre estratégias específicas de enfrentamento. • Desenho transversal impossibilita avaliação temporal e causalidade. • Não consideração de outras características individuais ou familiares na modelagem da acumulação de estressores. • Evolução das distrofias musculares de início na infância com o surgimento de novas morbidades.
2	Bell, Megan; Biesecker, Barbara B.; Bodurtha, Joann; Peay, Holly L. (2019). Uncertainty, Hope, and Coping Efficacy Among Mothers of Children with Duchenne/Becker Muscular Dystrophy.	Desenvolver e avaliar uma nova escala de esperança parental e testar as relações entre incerteza, esperança, espiritualidade e eficácia de enfrentamento entre mães de crianças com DBMD.	Corte transversal, quantitativa, com análises bivariadas entre variáveis-chave e confundidoras, bem como regressões multivariadas.	Ausente	Promover a redução da incerteza e fornecer intervenções que fortaleçam a esperança, oferecendo uma maneira produtiva de lidar com a incerteza, poder aprimorar a eficácia do enfrentamento e, em última instância, apoiar a adaptação.	<ul style="list-style-type: none"> • Natureza transversal do estudo limita inferências causais • Potencial de viés de recrutamento devido ao design de adesão voluntária • Representatividade da amostra afetada pela diversidade das fontes de recrutamento • Viés de participação pode ter sido gerado devido ao opt-in design do estudo

3	PEREIRA, I. C. Cuidadores familiares de crianças com doenças crônicas: o impacto da doença. Handle.net, 2021.	Avaliar a manifestação de cada uma das variáveis psicossociais (resiliência, bem-estar espiritual, bem-estar subjetivo e crescimento pós-traumático) nos cuidadores familiares de crianças com doenças crônicas.	Corte transversal, quantitativa, descritiva, exploratória, correlacional.	Compreendida como uma dimensão presente no ser humano, que leva o indivíduo a atribuir diversos significados às experiências humanas, englobando inúmeras relações entre as variáveis "bio", "psico" e "socioespirituais".	Possibilitar evidências empíricas importantes para a criação de um modelo teórico que explique a relação entre as mesmas.	<ul style="list-style-type: none"> • Amostra reduzida e predominantemente composta por mulheres • Estudo transversal, não longitudinal, limitando a avaliação das mudanças ao longo do tempo <ul style="list-style-type: none"> • Baixa variância explicada nos modelos de regressão • Falta de um modelo teórico que explique a relação entre as variáveis psicossociais • Ausência do último item da subescala Afeto Negativo • Impacto da pandemia de COVID-19 na condução do estudo, resultando na necessidade de recrutamento online e possíveis preocupações dos participantes em relação à pandemia.
---	---	--	---	--	---	--

Tabela 2: Identificação dos temas principais dos estudos revisados

Tabela 2	Resumo dos 03 estudos revisados (listados em ordem cronológica)	
Referências (em ordem cronológica)	Temas	
	Adaptação familiar	Capacidade de enfrentamento
Frishman et al. (2017)	<ul style="list-style-type: none"> • Presente 	<ul style="list-style-type: none"> • Presente
Bell et al. (2019)	<ul style="list-style-type: none"> • Presente 	<ul style="list-style-type: none"> • Presente
Pereira (2021)	<ul style="list-style-type: none"> • Presente 	<ul style="list-style-type: none"> • Presente

Dos três estudos revisados, Frishman et al. (2017) usou uma abordagem quantitativa e descritiva, com elementos exploratórios e correlacionais. Ele emprega métodos de análise bivariada e multivariada para examinar as associações entre as variáveis estudadas. O tamanho da amostra foi de 209 cuidadores familiares de indivíduos do sexo masculino diagnosticados com distrofinopatia de início na infância. Os participantes foram identificados pelo *Muscular Dystrophy Surveillance, Tracking, and Research Network (MD STARnet)*. Os cuidadores foram convidados a preencher um questionário enviado pelo correio eletrônico, que media o apoio social percebido, o estresse, a espiritualidade e a qualidade de vida familiar (FQoL). A análise dos dados foi realizada utilizando o modelo *Double ABCX* como estrutura analítica. Esse modelo é frequentemente utilizado para entender o impacto de eventos estressantes na família e a forma como os recursos internos e externos influenciam a adaptação familiar. Ele considera quatro componentes principais: estressor, recursos, percepção e adaptação. Essencialmente, examina como as famílias lidam com o estresse e se adaptam a ele ao longo do tempo.

Um acúmulo maior de estressores foi associado a: menor apoio social percebido, disponibilidade de relações familiares ou não familiares de apoio e maior estresse percebido; mas não com espiritualidade. A FQoL foi positivamente associada a todas as medidas de apoio e negativamente associada ao estresse e controle percebidos. A associação entre o acúmulo de estressores e a FQoL foi completamente mediada pelo apoio social percebido global, relações familiares de apoio e estresse e controle percebidos; as relações não familiares de apoio não permaneceram estatisticamente significativas após o controle de outros mediadores (Frishman et al. 2017).

Bell et al. (2019) usou abordagem quantitativa e descritiva para investigar mães de crianças com distrofia muscular de Duchenne (DMD) através de uma pesquisa transversal, parte de um estudo longitudinal de quatro anos. Um total de 202 mães participaram, recrutadas principalmente através do registro *DuchenneConnect, Parent Project Muscular Dystrophy (PPMD)* e

Clínica Neuromuscular do Centro Médico do Hospital Infantil de Cincinnati. Os critérios de elegibilidade incluíam ser mãe biológica de uma criança com DMD nos EUA, com mais de 18 anos e capaz de responder a uma pesquisa em inglês. As mães preencheram um questionário online, disponível por dois meses. Os dados coletados incluíam características demográficas, incerteza materna, esperança, espiritualidade e eficácia de enfrentamento. A incerteza foi avaliada usando a Escala de Incerteza dos Pais sobre a Saúde das Crianças (PUCHs), enquanto a esperança foi medida pela Escala de Esperança dos Pais (PHS) e a espiritualidade pela Escala de Experiência Espiritual Diária (DSES). A eficácia de enfrentamento foi avaliada pela Escala de Autoeficácia de Enfrentamento (CSES). As análises estatísticas incluíram correlações bivariadas entre variáveis-chave e confundidoras, além de regressões multivariadas para examinar associações entre incerteza, esperança, espiritualidade, eficácia de enfrentamento e outras características maternas e infantis.

A percepção de maior incerteza foi significativamente correlacionada com menor eficácia de enfrentamento, menor esperança, menos espiritualidade e ter filhos com redução de habilidade de locomoção. Menor eficácia de enfrentamento foi significativamente correlacionada com maior incerteza percebida, menos espiritualidade e menos esperança. Percepções menores de esperança foram significativamente correlacionadas com menor eficácia de enfrentamento, maior incerteza e menos espiritualidade. O modelo final incluiu esperança, incerteza e espiritualidade, e revelou que as mães com menos esperança, percepções mais altas de incerteza e menos espiritualidade tinham menos confiança em sua capacidade de lidar com a DMBD de seu filho. Regressões mostraram que mães mais velhas, com maior esperança e filhos com menos habilidade para deambular, tinham menor incerteza percebida. Esses fatores explicam uma parte significativa da variação na incerteza e na eficácia de enfrentamento (Bell et al. 2019).

Pereira (2021) usou uma abordagem quantitativa, descritiva, exploratória e correlacional, de corte transversal, com uma amostra não probabilística por conveniência de 127 pais ou principais cuidadores de crianças com doenças crônicas diagnosticadas antes dos 19 anos. A maioria dos participantes são mulheres portuguesas, com média de idade de 40,26 anos. Os instrumentos utilizados incluíram questionários sociodemográficos e clínicos, bem como escalas para medir estratégias de *coping*, apoio social, impacto da doença e qualidade de vida relacionada à saúde, como: Escala de Resiliência, Questionário de Bem-Estar Espiritual (*Spiritual WellBeing Questionnaire* [SWBQ]), Escala de Satisfação com a Vida (SWLSp), *Positive and Negative Affect Schedule* (PANAS) e Inventário de Desenvolvimento PósTraumático (*Posttraumatic Growth Inventory* [PTGI]).

Entre os dados sociodemográficos e clínicos do cuidador, encontraram-se correlações significativas, destacando-se a associação entre a escolaridade completa e o crescimento pós-traumático, a situação profissional e o crescimento pós-traumático, e o bem-estar espiritual, além da relação entre o estado civil e o crescimento pós-traumático. Entre as variáveis psicossociais e os dados da criança portadora de doença crônica, encontraram-se correlações significativas apenas entre a situação atual, o crescimento pós-traumático e o bem-estar espiritual (Pereira, 2021).

Utilizando o coeficiente de correlação de Pearson, observou-se que todas as variáveis estão significativamente correlacionadas entre si. Destacou-se uma correlação mais forte entre o bem-estar espiritual e a resiliência, e uma correlação mais fraca entre o bem-estar subjetivo e a resiliência. O crescimento pós-traumático apresentou uma correlação mais expressiva com o bem-estar espiritual e uma correlação mais fraca com a resiliência (Pereira, 2021).

4.1. ADAPTAÇÃO FAMILIAR

A teoria do estresse familiar aborda os mecanismos subjacentes ao equilíbrio entre as exigências familiares e as habilidades familiares de se ajustar a essas demandas (40). A adaptação familiar é definida como o resultado da capacidade dos membros familiares de empregar recursos em resposta às pressões. A partir dessa resposta, a família consegue conferir significado à sua situação, desenvolver uma identidade familiar distinta do diagnóstico e estabelecer conexões com redes de apoio externas (41). As percepções parentais, como a interpretação de um evento como controlável e previsível, também podem reduzir o impacto do estresse na adaptação, capacitando a família a enfrentar as demandas (42). O alto nível percebido de estresse tem sido consistentemente associado a uma adaptação familiar negativa em casos de doenças crônicas na infância (43-48), contribuindo para uma interpretação mais negativa das situações estressantes, percepções de gerenciamento reduzido e uma diminuição do significado da vida (40).

No estudo conduzido por Frishman et al. (2017), foi empregada a Escala de Bem-Estar Espiritual da Avaliação Funcional da Terapia de Doenças Crônicas (FACIT-Sp), uma versão modificada, que avalia os aspectos espirituais do bem-estar, incluindo serenidade, significado, propósito e conforto pela fé (50,51). Os resultados corroboram com estudos prévios sobre doenças crônicas na infância, indicando associações negativas entre a acumulação de estressores e a adaptação familiar, e uma redução dessa relação com o adequado suporte social e percepção de capacidade de lidar com o estresse (50-59). Os dados de Frishman et al. (2017) e Pereira (2021) ressaltam a resiliência das famílias diante dos estressores. Curiosamente, as percepções dos cuidadores sobre espiritualidade também estavam próximas do extremo superior, enquanto a percepção de incontrolabilidade do estresse tendia para o extremo inferior de suas respectivas distribuições. Esses achados sustentam a ideia de que, diante de um risco substancial, as famílias têm maior probabilidade de demonstrar resiliência quando possuem recursos adequados

para lidar com uma crise (40). No estudo de Frishman et al. (2017), os cuidadores que perceberam seu estresse recente como mais gerenciável relataram uma maior qualidade de vida familiar (FQoL). Observou-se que uma maior espiritualidade não estava relacionada à acumulação de estressores, mas associada a uma FQoL mais alta, o que foi consolidado por estudos anteriores (60).

Nos estudos conduzidos por Frishman et al. (2017) e Pereira (2021), os resultados em relação ao bem-estar espiritual estão alinhados com descobertas de diversos estudos, nos quais uma maior espiritualidade está associada a uma maior resiliência (61,62). Esses achados são explicados pelo fato de que a espiritualidade é considerada um fator diretamente ligado à resiliência, ou seja, os níveis de espiritualidade impactam diretamente os níveis de resiliência (61).

Além disso, o estudo de Pereira (2021) encontrou correlações positivas entre o bem-estar espiritual e variáveis como bem-estar subjetivo, resiliência e crescimento pós-traumático, o que está em consonância com resultados de outras pesquisas que indicam que o bem-estar subjetivo, a resiliência e o crescimento pós-traumático estão relacionados ao bem-estar espiritual (63-65), influenciando assim a adaptação e a capacidade de enfrentamento.

4.2. CAPACIDADE DE ENFRENTAMENTO

Pesquisas sobre espiritualidade destacaram sua capacidade de prever a resiliência e demonstraram que o aumento da espiritualidade é uma estratégia de enfrentamento eficaz para lidar com eventos adversos da vida (66). A espiritualidade é um elemento crucial ligado ao bem-estar dos pais que cuidam de um filho com uma condição médica incerta e compartilha uma sobreposição conceitual com a esperança. Um estudo qualitativo sobre a experiência de esperança dos pais que enfrentam o diagnóstico de câncer maligno em seus filhos descreveu a espiritualidade como um fator significativo para manter a esperança (67), enquanto outro estudo mostrou que o bem-estar espiritual também está associado a uma menor sensação de incerteza entre os pais (68).

Simultaneamente, a esperança tem demonstrado ter um impacto significativo nas avaliações de incerteza e na adaptação a uma condição médica (69). O estudo conduzido por Bell et al. (2019) contribuiu para essa evidência crescente, especialmente no contexto das distrofinopatias, ao desenvolver e avaliar uma escala de esperança para pais e analisar as relações entre incerteza, esperança, espiritualidade e eficácia de enfrentamento entre mães de crianças com DBMD. Nessa pesquisa, foi empregada também a Escala de Experiência Espiritual Diária (DSES), uma medida composta por 16 itens que avaliam a experiência espiritual comum e é projetada para ser relevante em todas as crenças espirituais (70).

A análise da nova escala de esperança por Bell et al. (2019), desenvolvida para compreender as interações entre incerteza, esperança, espiritualidade e eficácia de enfrentamento em mães de crianças com DMBD, revelou uma correlação positiva entre esperança e eficácia de enfrentamento, bem como entre esperança e espiritualidade, e uma correlação negativa entre esperança e incerteza, em linha com pesquisas anteriores [71-75, 69]. Além

disso, que tanto a incerteza quanto a esperança são preditores independentes da eficácia de enfrentamento. Essa descoberta sugere que a esperança pode ser uma estratégia para lidar com a incerteza e destaca seu papel em promover a confiança no enfrentamento de uma condição de vida limitada em crianças. A Teoria da Incerteza de Mishel postula que a incerteza em torno de uma doença geralmente diminui com a idade para a maioria das condições crônicas ou estáveis; evidências sugerem que essa tendência também é válida para essa condição progressiva (76).

Essas novas descobertas corroboram com a literatura (77) que demonstrou elevados níveis de espiritualidade após momentos adversos. O estudo tinha como objetivo principal avaliar a religiosidade e espiritualidade de famílias de crianças com insuficiência renal crônica em diálise peritoneal, constatando que os comportamentos dos membros da família são diretamente influenciados pela espiritualidade, uma vez que a crença em forças espirituais proporciona conforto e esperança.

5. DISCUSSÃO

Os estudos de Frishman et al. (2017) e Pereira (2021) demonstram uma associação significativa entre a espiritualidade e a resiliência familiar. Os resultados sugerem que as famílias que percebem seu estresse como gerenciável e que possuem uma maior espiritualidade tendem a ter uma melhor qualidade de vida familiar. Essa relação positiva entre espiritualidade e resiliência é consistente com achados de pesquisas anteriores, destacando a importância da espiritualidade como um recurso adaptativo em situações de estresse e adversidade.

A espiritualidade emerge como uma estratégia eficaz de enfrentamento, demonstrando sua capacidade de prever a resiliência e promover adaptações positivas diante de desafios. A correlação entre bem-estar espiritual, bem-estar subjetivo, resiliência e crescimento pós-traumático ressalta a influência positiva da espiritualidade na adaptação e na capacidade de enfrentamento dos cuidadores de pacientes com Duchenne. Esses resultados destacam a importância de abordagens que valorizem a dimensão espiritual no cuidado e no apoio aos cuidadores.

O estudo de Bell et al. (2019) introduz a esperança como um elemento significativo nas avaliações de incerteza e na adaptação a condições médicas. A análise da escala de esperança revela correlações positivas entre esperança e espiritualidade, e uma correlação negativa entre esperança e incerteza. Esses achados sugerem que a espiritualidade pode potencializar a esperança e intervenções no âmbito do bem-estar espiritual pode desempenhar um papel crucial na promoção da confiança e na capacidade de enfrentamento dos cuidadores, especialmente em contextos de condições médicas desafiadoras como a distrofia muscular de Duchenne.

5.1. LIMITAÇÕES

Os resultados deste estudo narrativo revelaram algumas limitações, como a escassez de estudos revisados, indicando a necessidade de pesquisas com uma amostragem mais ampla e diversificada. Além disso, o desenho transversal, comum em todos os estudos analisados, implica que não foi possível avaliar mudanças ao longo do tempo nas variáveis estudadas, inclusive na espiritualidade percebida pelas famílias cuidadoras. Dessa maneira, as análises realizadas se limitaram a examinar associações entre variáveis, não sendo possível estabelecer relações de causalidade.

Adicionalmente, o protocolo não contemplou a inclusão de múltiplos respondentes por família, o que impossibilitou a comparação de percepções individuais dentro de um mesmo núcleo familiar em relação à espiritualidade e seu impacto na adaptação. A espiritualidade, como fator de resiliência e significado, pode desempenhar um papel crucial na forma como as famílias enfrentam os desafios associados às distrofias musculares.

6. CONCLUSÃO

A revisão narrativa evidenciou a relação entre espiritualidade e bem-estar entre os cuidadores familiares de pacientes com Distrofia Muscular de Duchenne (DMD), destacando a importância da espiritualidade na adaptação familiar e na capacidade de enfrentamento.

Portanto, é imperativo que investigações adicionais sejam conduzidas, utilizando desenhos longitudinais, nos quais informações clínicas e familiares detalhadas, incluindo aspectos espirituais, sejam coletadas de maneira prospectiva em amostras amplas e provenientes de múltiplos centros. Essas investigações devem empregar análises rigorosas para desenvolver uma compreensão mais abrangente dos efeitos primários, bem como dos moderadores e mediadores, de múltiplos fatores na qualidade de vida familiar, considerando especialmente o papel da espiritualidade. Esse passo é crucial antes de considerar intervenções específicas relacionadas à espiritualidade no contexto do cuidado familiar às distrofias musculares.

7. REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Passamano L, Taglia A, Palladino A, et al. Improvement of survival in Duchenne muscular dystrophy: retrospective analysis of 835 patients. *Acta Myol.* 2012;31(2):121-125.
2. Saito T, Kawai M, Kimura E, et al. Study of Duchenne muscular dystrophy long-term survivors aged 40 years and older living in specialized institutions in Japan. *Neuromuscul Disord.* 2017;27(2):107-114. <https://doi.org/10.1016/j.nmd.2016.11.012>.
3. Moreira, M. C. N., Gomes, R., & Sá, M. R. C. de. (2014). Doenças crônicas em crianças e adolescentes: uma revisão bibliográfica. *Ciência & Saúde Coletiva*, 19(7), 2083–2094. doi:10.1590/1413-81232014197.20122013
4. Compas, B. E., Jaser, S. S., Dunn, M. J., & Rodriguez, E. M. (2012). Coping with Chronic Illness in Childhood and Adolescence. *Annual Review of Clinical Psychology*, 8(1), 455–480. doi:10.1146/annurev-clinpsy-032511-143108.
5. Caçador, A. F. S. (2018). Doença crónica em crianças e adolescentes e a adaptação escolar. Dissertação de Mestrado em Intervenção Psicológica, Educação e Desenvolvimento Humano. Faculdade de Psicologia e de Ciências da Educação – Universidade do Porto, Porto.
6. Ferreira, H. P. (2010). O impacto da doença crônica do cuidador (Dissertação de Mestrado).
7. Samson A, Tomiak E, Dimillo J, et al. The lived experience of hope among parents of a child with Duchenne muscular dystrophy: perceiving the human being beyond the illness. *Chronic Illn.* 2009;5(2):103-114. <https://doi.org/10.1177/1742395309104343>.
8. Albuquerque, J. D., Silva, J. D., Ferreira, F. A. R., Costa Junior, C. D., & Saldanha, A. A. W. (2009). Resiliência e Qualidade de Vida de Mães de Criança com Câncer. Trabalho apresentado, (15).
9. Leite, M. F., Gomes, I. P., Morais, J. D., & Collet, N. (2015). Impacto na vida de mães cuidadoras de crianças com doença crônica. *Revista Enfermagem UERJ*, 23 (4), 501- 506. doi: 10.12957/reuerj.2015.4966.
10. Pêgo, C. O., & Barros, M. M. A. (2017). Unidade de Terapia Intensiva Pediátrica: expectativas e sentimentos dos pais da criança gravemente enferma. *Rev. bras. ciênc. saúde*, 11-20. doi: 10.4034/RBCS.2017.21.01.02.
11. Scorgie K. & Sobsey D. (2000) Transformational outcomes associated with parenting children who have disabilities. *Mental Retardation* 38, 195–206.

12. Hastings R.P. & Taunt H.M. (2002) Positive perceptions in families of children with developmental disabilities. *American Journal on Mental Retardation* 107, 116–127.
13. Bayat M. (2007) Evidence of resilience in families of children with autism. *Journal of Intellectual Disability Research* 51, 702–714.
14. Green S.E. (2007) “We’re tired, not sad”: benefits and burdens of mothering a child with a disability. *Social Science & Medicine* 64, 150–163.
15. Chen J.Y., Chen S.S., Jong Y.J., Yang Y.H. & Chang Y.Y. (2002) A comparison of the stress and coping strategies between the parents of children with Duchenne muscular dystrophy and children with a fever. *Journal of Pediatric Nursing* 17, 369–379.
16. Hill, P.C.; Pargament, K., II; Hood, R.W.; McCullough, J.M.E.; Michael, E.; Swyers, J.P.; Larson, D.B.; Zinnbauer, B.J. Conceptualizing Religion and Spirituality: Points of Commonality, Points of Departure. *J. Theory Soc. Behav.* 2000, 30, 51–77
17. Miller, W.R.; Thoresen, C.E. Spirituality, Religion, and Health: An Emerging Research Field. *Am. Psychol.* 2003, 58, 24–35.
18. Worthington, E.L.; Hook, J.N.; Davis, D.E.; McDaniel, M.A. Religion and Spirituality. *J. Clin. Psychol.* 2011, 67, 204–214.
19. Zinnbauer, B.J.; Pargament, K.I. Religiousness and Spirituality. In *Handbook of the Psychology of Religion and Spirituality*; Paloutzian, R.F., Park, C.L., Eds.; Guilford Press: New York, NY, USA, 2005; pp. 21–42. ISBN 978-1-57230-922-7.
20. Hill, P.C.; Pargament, K.I. Advances in the Conceptualization and Measurement of Religion and Spirituality: Implications for Physical and Mental Health Research. *Am. Psychol.* 2003, 58, 64–74.
21. Benson, P.L.; Scales, P.C.; Syvertsen, A.K.; Roehlkepartain, E.C. Is Youth Spiritual Development a Universal Developmental Process? An International Exploration. *J. Posit. Psychol.* 2012, 7, 453–470.
22. King, P.E. Religion and Identity: The Role of Ideological, Social, and Spiritual Contexts. *Appl. Dev. Sci.* 2003, 7, 197–204.
23. King, P.E. Spirituality as Fertile Ground for Positive Youth Development. In *Positive Youth Development & Spirituality: From Theory to Research*; Lerner, R.M., Roeser, R.W., Phelps, E., Eds.; Templeton Foundation Press: West Conshohocken, PA, USA, 2008; pp. 55–73. ISBN 978-1-59947-143-3.
24. Zinnbauer, B.J.; Pargament, K.I.; Cole, B.; Rye, M.S.; Butter, E.M.; Belavich, T.G.; Hipp, K.M.; Scott, A.B.; Kadar, J.L. Religion and Spirituality: Unfuzzifying the Fuzzy. *J. Sci. Study Relig.* 1997, 36, 549.

25. Funk L, Stajduhar K, Toye C et al. Part 2: home-based family caregiving at the end of life: a comprehensive review of published qualitative research (1998-2008). *Palliat Med.* 2010; 24(6):594–607. <https://doi.org/10.1177/0269216310371411>.
26. World Health Organization. Calouste Gulbenkian Foundation Integrating the Response to Mental Disorders and Other Chronic Diseases in Health Care Systems; World Health Organization: Geneva, Switzerland, 2014.
27. Stein, R.E.K.; Bauman, L.J.; Westbrook, L.E.; Coupey, S.M.; Ireys, H.T. Framework for Identifying Children Who Have Chronic Conditions: The Case for a New Definition. *J. Pediatr.* 1993, 122, 342–347.
28. O'Halloran, J.; Miller, G.C.; Britt, H. Defining Chronic Conditions for Primary Care with ICPC-2. *Fam. Pract.* 2004, 21, 381–386.
29. Clarke, A. What Is a Chronic Disease? The Effects of a Re-Definition in HIV and AIDS. *Soc. Sci. Med.* 1994, 39, 591–597. [CrossRef]
30. Lubkin, I.M.; Larsen, P.D. What Is Chronicity? In *Chronic Illness: Impact and Intervention*; Jones & Bartlett Learning: Sudbury, ON, Canada, 2002; pp. 3–24.
31. Abraham, A.; Silber, T.J.; Lyon, M. Psychosocial Aspects of Chronic Illness in Adolescence. *Indian J. Pediatr.* 1999, 66, 447–453.
32. King, P.E.; Carr, D.; Boitor, C. Religion, Spirituality, Positive Youth Development, and Thriving. In *Advances in Child Development and Behavior*; Elsevier: Amsterdam, The Netherlands, 2011; Volume 41, pp. 161–195. ISBN 978-0-12-386492-5.
33. Cotton, S.; Zebracki, K.; Rosenthal, S.L.; Tsevat, J.; Drotar, D. Religion/Spirituality and Adolescent Health Outcomes: A Review. *J. Adolesc. Health* 2006, 38, 472–480.
34. Hardy, S.A.; Nelson, J.M.; Moore, J.P.; King, P.E. Processes of Religious and Spiritual Influence in Adolescence: A Systematic Review of 30 Years of Research. *J. Res. Adolesc.* 2019, 29, 254–275.
35. Puchalski C, Ferrell B, Virani R et al. Improving the quality of spiritual care as a dimension of palliative care: The report of the consensus conference. *J Palliat Med.* 2009; 12(10):885–904. <https://doi.org/10.1089/jpm.2009.0142>
36. Khan RI. End of life care in Pakistan: some ethical issues. *J Coll of Physicians Surg Pak.* 2012; 22(12):745–746
37. Frishman, Natalia; Conway, Kristin Caspers; Andrews, Jennifer; Oleson, Jacob; Mathews, Katherine; Ciafaloni, Emma; Oleszek, Joyce; Lamb, Molly; Matthews, Dennis; Paramsothy, Pangaja; McKirgan, Lowell; Romitti, Paul (2017). Perceived quality of life among caregivers of children with a childhood-onset

- dystrophinopathy: a double ABCX model of caregiver stressors and perceived resources. *Health and Quality of Life Outcomes*, 15(1), 33–. doi:10.1186/s12955-017-0612-1
38. Bell, Megan; Biesecker, Barbara B.; Bodurtha, Joann; Peay, Holly L. (2019). Uncertainty, Hope, and Coping Efficacy Among Mothers of Children with Duchenne/Becker Muscular Dystrophy. *Clinical Genetics*, (), –. doi:10.1111/cge.13528
 39. PEREIRA, I. C. Cuidadores familiares de crianças com doenças crônicas: o impacto da doença. Handle.net, 2021.
 40. Patterson JM. Understanding family resilience. *J Clin Psychol*. 2002; 58:233–46.
 41. Patterson JM, Garwick AW. Levels of meaning in family stress theory. *Fam Process*. 1994;33:287–304.
 42. Hill C, Rose J. Parenting stress in mothers of adults with an intellectual disability: parental cognitions in relation to child characteristics and family support. *J Intellect Disabil Res*. 2009;53:969–80
 43. Chen JY. Mediators affecting family function in families of children with Duchenne muscular dystrophy. *Kaohsiung J Med Sci*. 2008;24:514–22.
 44. Chen JY, Clark MJ. Family function in families of children with Duchenne muscular dystrophy. *Fam Community Health*. 2007;30:296–304.
 45. Thompson Jr RJ, Zeman JL, Fanurik D, Sirotkin-Roses M. The role of parent stress and coping and family functioning in parent and child adjustment to Duchenne muscular dystrophy. *J Clin Psychol*. 1992;48:11–9
 46. Manning MM, Wainwright L, Bennett J. The double ABCX model of adaptation in racially diverse families with a school-age child with autism. *J Autism Dev Disord*. 2011;41:320–31
 47. Skok A, Harvey D, Reddihough D. Perceived stress, perceived social support, and wellbeing among mothers of school-aged children with cerebral palsy. *J Intellect Dev Disabil*. 2006;31:53–7.
 48. Fonseca A, Nazare B, Canavarro MC. Parenting an infant with a congenital anomaly: how are perceived burden and perceived personal benefits related to parenting stress? *J Clin Psychol Med Settings*. 2015;22:64–76
 49. Pozo P, Sarria E, Brioso A. Family quality of life and psychological well-being in parents of children with autism spectrum disorders: a double ABCX model. *J Intellect Disabil Res*. 2014;58(5):442–458.
 50. Peterman AHFG, Brady MJ, Hernandez L, Cella D. Measuring Spiritual Well-Being in People With Cancer: The Functional Assessment of Chronic

- Illness Therapy—Spiritual Well-Being Scale (FACIT-Sp). *Ann Behav Med.* 2002;24:49–58.
51. Peterman AH, Reeve CL, Winford EC, Cotton S, Salsman JM, McQuellon R, Tsevat J, Campbell C. Measuring meaning and peace with the FACIT Spiritual Well-Being Scale: distinction without a difference? *Psychol Assess.* 2014;26:127–37.
 52. Kenneson A, Bobo JK. The effect of caregiving on women in families with Duchenne/Becker muscular dystrophy. *Health Soc Care Community.* 2010;18:520–8.
 53. Chen JY. Mediators affecting family function in families of children with Duchenne muscular dystrophy. *Kaohsiung J Med Sci.* 2008;24:514–22
 54. Pakenham KI, Samios C, Sofronoff K. Adjustment in mothers of children with Asperger syndrome: an application of the double ABCX model of family adjustment. *Autism.* 2005;9:191–212.
 55. Stuart M, McGrew JH. Caregiver burden after receiving a diagnosis of an autism spectrum disorder. *Res Autism Spectr Disord.* 2009;3:86–97.
 56. Saloviita T, Italinna M, Leinonen E. Explaining the parental stress of fathers and mothers caring for a child with intellectual disability: a Double ABCX Model. *J Intellect Disabil Res.* 2003;47:300–12.
 57. Pozo P, Sarria E, Brioso A. Family quality of life and psychological well-being in parents of children with autism spectrum disorders: a double ABCX model. *J Intellect Disabil Res.* 2014;58(5):442–458.
 29. Bristol MM. Mothers of children with autism or communication disorders: successful adaptation and the double ABCX model. *J Autism Dev Disord.* 1987;17:469–86.
 58. Lavee Y, Ben-Ari A. The association of daily hassles and uplifts with family and life satisfaction: does cultural orientation make a difference? *Am J Community Psychol.* 2008;41:89–98.
 59. Lavee Y, McCubbin HI, Patterson JM. The Double ABCX model of family stress and adaptation: An empirical test by analysis of structural equations with latent variables. *J Marriage Fam.* 1985;47:811–25.
 60. Bredle J, Salsman J, Debb S, Arnold B, Cella D. Spiritual well-being as a component of health-related quality of life: The functional assessment of chronic illness therapy—Spiritual well-being scale (FACIT-Sp). *Religions.* 2011;1:77–94.
 61. Margaça, C. M. F. (2015). Religiosidade e Espiritualidade como fatores promotores de Coping Resiliente na adultez e na velhice. Dissertação de Mestrado em Psicologia Clínica e da Saúde. Universidade da Beira Interior de Ciências Sociais e Humanas, Covilhã.

62. Taranu, O. (2011). Estudo da relação entre resiliência e espiritualidade numa amostra portuguesa. Dissertação de Mestrado em Psicologia Clínica e da Saúde. Universidade de Lisboa – Faculdade de Psicologia, Lisboa.
63. Calhoun, L. G., & Tedeschi, R. G. (Eds.). (2006). Handbook of posttraumatic growth: Research & practice. Lawrence Erlbaum Associates Publishers.
64. Dey, N. E. Y., Amponsah, B., & Wiafe-Akenteng, C. B. (2019). Spirituality and subjective well-being of Ghanaian parents of children with special needs: The mediating role of resilience. *Journal of Health Psychology*, 1-12. doi: 10.1177/1359105319873956.
65. Roldão, L. I. F. (2015). Espiritualidade e bem-estar subjetivo em familiares cuidadores e idosos com dependência física. Dissertação de Mestrado em Enfermagem Avançada. Instituto de Ciências da Saúde – Universidade Católica Portuguesa, Porto.
66. Lopes, K. C. (2014). O bem-estar espiritual e resiliência em doentes oncológicos. Dissertação de Mestrado em Psicologia Clínica. Instituto Universitário Ciências Psicológicas, Sociais e da Vida, Lisboa.
67. Barrera M, Granek L, Shaheed J, et al. The tenacity and tenuousness of hope: parental experiences of hope when their child has a poor cancer prognosis. *Cancer Nurs*. 2013;36(5):408-416. doi:10.1097/NCC.0b013e318291ba7d.
68. Yanes T, Humphreys L, McInerney-Leo A, Biesecker B. Factors Associated with Parental Adaptation to Children with an Undiagnosed Medical Condition. *J Genet Couns*. 2017;26(4):829-840. doi:10.1007/s10897-016-0060-9
69. Fitzgerald Miller J. Hope: a construct central to nursing. *Nurs Forum*. 2007;42(1):12-19. doi:10.1111/j.1744-6198.2007.00061.x
70. Underwood LG, Teresi JA. The daily spiritual experience scale: development, theoretical description, reliability, exploratory factor analysis, and preliminary construct validity using health-related data. *Ann Behav Med*. 2002;24(1):22-33. doi:10.1207/S15324796ABM2401_04
71. Truitt M, Biesecker B, Capone G, Bailey T, Erby L. The role of hope in adaptation to uncertainty: the experience of caregivers of children with Down syndrome. *Patient Educ Couns*. 2012;87(2):233-238. doi:10.1016/j.pec.2011.08.015
72. Herth KA. The relationship between level of hope and level of coping response and other variables in patients with cancer. *Oncol Nurs Forum*. 1989;16(1):67-72. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/2911529>
73. Felder BE. Hope and coping in patients with cancer diagnoses. *Cancer Nurs*. 2004;27(4):320-324. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15292728>

74. Zhang J, Gao W, Wang P, Wu Z. Relationships among hope, coping style and social support for breast cancer patients. *Chin Med J (Engl)*. 2010;123(17):2331-2335.<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21034544>.
75. Wonghongkul T, Moore SM, Musil C, Schneider S, Deimling G. The influence of uncertainty in illness, stress appraisal, and hope on coping in survivors of breast cancer. *Cancer Nurs*. 2000;23(6):422-429.
<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11128121>.
76. Mishel MH. Uncertainty in illness. *Image J Nurs Sch*. 1988;20(4):225-232.
<http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3203947>.
77. Paula, É. S. D., Nascimento, L. C., & Rocha, S. M. M. (2009). Religião e espiritualidade: experiência de famílias de crianças com Insuficiência Renal Crônica. *Revista Brasileira de Enfermagem*, 62 (1), 100-106. doi: 10.1590/S0034-71672009000100015.