



REPORT FINALE

Il costo sociale ed economico della spina bifida in Italia: uno studio di costo della malattia

Numero protocollo: COI SB

Project leader: G. Walter Vinci, Libero docente Università degli Studi di Milano

Co - Project leader Giorgio L. Colombo, Università degli Studi di Pavia

Co - Project leader: Mario De Gennaro, Vice Presidente Fondazione Italia Continenza; O.C. di Urodinamica, Ospedale Pediatrico Bambino Gesù Roma

Advisory board: Claudia Gatti, Centro Spina Bifida Parma

Giovanni Mosiello, Centro Spina Bifida Bambino Gesù Roma

Tiziana Redaelli, Direttore Centro Spina Bifida Niguarda Milano

Francesca Schioppa, Coordinatore Pediatra Centro Spina Bifida Niguarda Milano

Maria Cristina Dieci, Presidente A.S.B.I., Associazione Spina Bifida Italia Onlus

Ricercatori: Sergio Di Matteo, S.A.V.E. Studi Analisi Valutazioni Economiche Milano

Elena Macrellino, Centro Spina Bifida Niguarda Milano

Maria Paola Pascali, Centro Spina Bifida Bambino Gesù Roma

Marta Vinci, S.A.V.E. Studi Analisi Valutazioni Economiche Milano

Milano, 27/11/08

Il contenuto della presente è da ritenersi strettamente riservato e di proprietà di A.S.B.I.; è ad uso degli Sperimentatori e del personale coinvolto nello studio. Le informazioni non pubblicate in esso contenute non possono essere rivelate a terzi né pubblicate, tranne per quanto necessario per ottenere il consenso informato del soggetto alla partecipazione allo studio, senza la preventiva approvazione scritta di A.S.B.I., che ha la responsabilità della protezione della proprietà intellettuale, ove applicabile.

Indice

| | |
|---|----|
| 1. Introduzione | 3 |
| 1.1 Background e rationale | 3 |
| 1.2 Gli studi di costo della malattia..... | 3 |
| 2. Obiettivi del progetto | 5 |
| 2.1 Obiettivo primario | 5 |
| 2.2 Obiettivi secondari..... | 5 |
| 3. Materiali e metodi | 5 |
| 3.1 Disegno della ricerca | 5 |
| 3.2 Popolazione..... | 6 |
| 3.3 Criteri di inclusione | 6 |
| 3.4 Criteri di esclusione..... | 6 |
| 3.5 Parametri valutabili..... | 6 |
| 3.6 La scheda raccolta dati..... | 6 |
| 3.7 Analisi statistica | 7 |
| 3.8 Sezione economica | 7 |
| 4. Risultati | 7 |
| 4.1 Caratteristiche sociodemografiche | 7 |
| 4.2 Profilo clinico..... | 8 |
| 4.3 Aspetti economici | 8 |
| 5. Discussione | 9 |
| 6. Conclusioni | 9 |
| Bibliografia | 10 |

1. Introduzione

1.1 Background e razionale

La spina bifida è una malformazione congenita del midollo spinale, i nervi e le strutture adiacenti di rivestimento (vertebre, muscoli, cute): sono possibili diversi livelli di gravità e di disabilità funzionale. Tuttavia, nei casi tipici, la patologia è caratterizzata, da una lesione a livello del midollo (più spesso mielo-meningocele a livello toracico, lombare e lombo-sacrale) con conseguente paralisi degli arti inferiori, idrocefalo, incontinenza intestinale ed urinaria, riduzione della sensibilità.

La patologia insorge nel primo mese di gravidanza ed è riconoscibile alla nascita - anche se spesso è possibile fare diagnosi prenatale - se la forma è manifesta e aperta, mentre può essere più difficile la diagnosi per le forme occulte e coperte. Spesso è associata ad altre malformazioni quali l'idrocefalo e la malformazioni di Chiari.

In Italia l'incidenza della spina bifida è di 4-6 casi ogni 10.000 nati (circa 360 nuovi casi all'anno), in Gran Bretagna è di 8 su 1000, 1 su 1000 in Giappone.

La stima della frequenza della spina bifida in termini di prevalenza totale (numero di casi di spina bifida tra i nati + numero casi di spina bifida in interruzioni terapeutiche di gravidanza (IVGT) dopo diagnosi prenatale) ed in termini di prevalenza tra i nati (numero di casi di spina bifida tra i nati) può essere desunta dai registri di malformazioni operanti in alcune regione Italiane. Si stima che attualmente la prevalenza totale della spina bifida in Italia sia dello 0,38 per mille nati. Data una percentuale di circa il 70% di IVGT la prevalenza tra i nati risulta dello 0,11 per mille (1 su 8750 nati, circa 64 casi/anno). La stima della prevalenza nella popolazione (numero di persone con esiti dovuti alla spina bifida presenti nella popolazione) è ignota. In assenza di una specifica e costosa indagine potrebbe essere stimata sulla base dei tassi di prevalenza tra i nati degli anni passati e sulla stima della sopravvivenza.

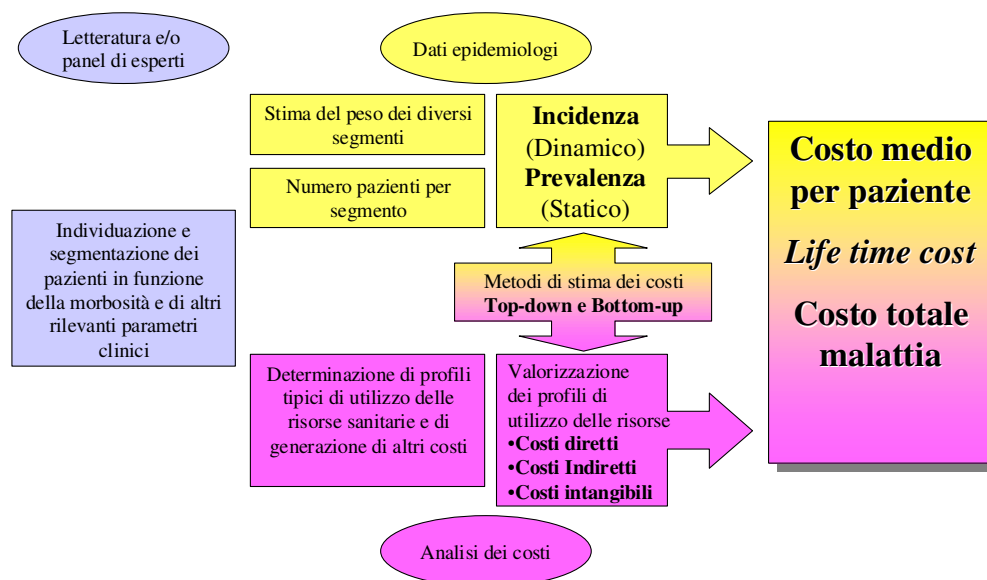
I costi economici della spina bifida (e dei difetti del tubo neurale in generale) e della sua prevenzione con acido folico non sono stati mai stimati in Italia. Anche negli altri paesi Europei o nel Nord America, tale valutazione è carente. Tuttavia questa valutazione è di estrema importanza per poter valutare il costo-beneficio della attuale supplementazione a base di acido folico e il costo-beneficio di una eventuale fortificazione alimentare.

1.2 Gli studi di costo della malattia

In sanità pubblica, l'importanza dei problemi sanitari è espressa in termini di frequenza (incidenza o prevalenza), gravità (mortalità) e costi totali. Gli studi sui costi sociali di una patologia sono utili per quantificare l'assorbimento di risorse causato da una determinata patologia stessa in un dato periodo temporale. Ogni patologia comporta infatti effetti negativi sulle condizioni di vita del paziente e dei suoi familiari, e quindi sulla collettività. L'analisi dei costi complessivi (diretti e indiretti) di una particolare patologia in una determinata popolazione viene definita determinazione del Costo di Malattia (*Cost of Illness* - COI). Gli studi di Costo della malattia (COI) hanno come obiettivo la quantificazione del costo di una patologia o di un evento clinico e non prevedono, di conseguenza, il confronto di alternative. Il costo sociale di una patologia, ossia l'onere economico e il livello di utilità perduta per la collettività, fa riferimento a tre grandi componenti: i costi diretti (le risorse erogate per la prevenzione e il trattamento della patologia stessa e delle patologie correlate), i costi indiretti (imputabili alle perdite di produzione per assenze dal lavoro da parte dei soggetti colpiti) e i costi intangibili (gli effetti psicosociali, quali sofferenza e disagio causati dalla patologia).

Il punto di partenza dell'analisi COI sono i dati epidemiologici (Figura 1). Attraverso una stima del numero di individui che soffrono della patologia in esame è possibile, in base alle risorse consumate dai pazienti, determinare il costo medio annuo per ciascun individuo ed il costo totale annuo. In base ai criteri epidemiologici impiegati, gli studi di COI possono essere sviluppati secondo due approcci. Il primo (*prevalence-based*) stima il costo complessivo di una patologia, in una determinata popolazione, per un determinato periodo. Il secondo (*incidence-based*) valuta il costo per l'intera vita dei casi diagnosticati in un certo anno. Le metodologie di analisi dei costi comunemente impiegate nelle COI si distinguono in: *top-down* e *bottom-up*. La metodologia *top-down* fa riferimento a dati aggregati disponibili a livello nazionale, e implica un processo di imputazione della spesa sanitaria complessiva alle singole patologie. Il metodo *bottom-up* fa riferimento al consumo diretto di risorse, partendo da dati epidemiologici e dal costo dei singoli fattori, giungendo quindi al computo dei costi attraverso il prodotto fra consumo medio delle risorse e relativo prezzo/costo.

Figura 1 – Sviluppo di uno studio di costo della malattia



Gli studi di costo della malattia sono pertanto in grado di supportare politiche sanitarie e fornire indicazioni per i processi decisionali in sanità attraverso le seguenti azioni:

- Identificare le diverse componenti del costo e quanto esse gravino sulla società per diagnosi e cura di una specifica patologia
 - funzione di informazione ed educazione
 - indirizzare la ricerca verso l'attività di prevenzione
 - individuare le priorità cliniche con rilevante impatto economico nella lotta contro la malattia
- Stimare i costi su insiemi di patologie permettendo confronti tra le stesse al fine di:
 - definire delle graduatorie dei problemi sanitari in funzione del volume dei costi
 - spiegare le attuali tendenze di spesa e proiettare costi futuri della malattia
- Identificare i principali "cost-driver" di una malattia
 - Identificare fattori di costo in funzione della gravità o stadio di progressione della malattia o altro.
 - individuare comportamenti di consumo dei pazienti e valutare e confrontare il comportamento prescrittivo dei medici
 - in funzione della gravità e dello stadio di progressione della malattia

- Identificare gli elementi indispensabili per effettuare successivi studi di valutazione economica
 - (ad es. analisi costo-efficacia costo-beneficio, ecc.).

In questa prospettiva la conoscenza del peso economico-sociale della patologia può stimolare la programmazione di interventi sanitari finalizzati alla prevenzione della patologia stessa o al potenziamento dei servizi e/o trattamenti preposti al suo trattamento.

2. Obiettivi del progetto

La ricerca è stata realizzata al fine di definire le diverse tipologie di costi associati alla diagnosi e alla cura dei pazienti con Spina Bifida:

1. costi diretti sanitari:
2. costi diretti non sanitari (costi di trasporto, di assistenza, ecc.) sostenuti dal paziente, dai suoi familiari, da strutture pubbliche, ecc.
3. costi indiretti (valore delle giornate di lavoro perse, dal paziente o dai suoi famigliari)
4. analisi delle informazioni rilevate in termini di costi allo scopo di fornire il costo medio per persona "life-time" con spina bifida

2.1 Obiettivo primario

Analizzare l'impatto socio-sanitario della gestione di pazienti affetti da spina bifida e, in particolare valutare i costi diretti (es. interventi chirurgici, ricoveri ospedalieri, interventi riabilitativi e di prevenzione terziaria, assegni per la disabilità conseguente) ed indiretti (es.: produttività perduta dai genitori per l'assistenza, produttività perduta dal soggetto affetto) associati alla spina bifida.

2.2 Obiettivi secondari

- identificazione di percorsi terapeutici relativi alla diagnosi e al trattamento di tale malformazione e delle sue complicanze;
- indicazioni sui diversi componenti di costo a carico del SSN e della società per la gestione di tale tipologia di pazienti;
- stima del costo annuo a carico della società per il trattamento della spina bifida.

3. Materiali e metodi

3.1 Disegno della ricerca

Si tratta di studio osservazionale multicentrico retrospettivo sul costo sociale determinato dai pazienti affetti da spina bifida.

3.2 Popolazione

Lo studio è stato condotto in tre centri spina bifida in Italia (Milano Niguarda, Parma, Roma, Ospedale Pediatrico Bambin Gesù) nel periodo febbraio – aprile 2008, con followup a tre mesi. Nello studio sono stati raccolti dati di costo relativi ai 12 mesi precedenti la visita di arruolamento (T0) e successivamente al T3 (tre mesi dopo la visita T0 \pm 20 giorni) attraverso la lettura telefonica di una scheda consegnata a T0 attraverso la quale il paziente potrà raccogliere le informazioni salienti relative ai costi affrontati nel periodo in oggetto.

Sono stati inclusi nello studio tutti i pazienti con spina bifida che si sono presentati in sequenza nel periodo di arruolamento nei centri coinvolti e che hanno acconsentito a partecipare allo studio (firma del Consenso Informato), per un totale di 128 pazienti valutabili ad oggi

3.3 Criteri di inclusione

- deficit motorio walking, walking con ortesi semplici, walking con ortesi complesse, non walking;
- compreso le finalità dello studio, in grado di rispondere e firmato il consenso informato (per i minori di anni 18 il genitore, secondo all.2)

3.4 Criteri di esclusione

- pazienti con tipo di lesione a livello dorsale fino a D5/D6;
- pazienti con spina bifida aperta con comorbidità importante;
- pazienti non affidabili nella compilazione dei questionari;
- pazienti che alla data della rilevazione stiano partecipando ad uno studio clinico.

3.5 Parametri valutabili

I dati di tutti i pazienti verranno analizzati tramite analisi multivariata effettuata sulle principali variabili. Le variabili indagate saranno principalmente:

- Caratteristiche demografiche dei pazienti
- Stratificazione per fascia di età
- Eventuali patologie concomitanti
- Tipologie di trattamento (farmacologico, chirurgico, riabilitativo, ecc.)
- Modalità di trattamento degli effetti collaterali e degli esami strumentali

3.6 La scheda raccolta dati

Il questionario cercherà di ricostruire il percorso diagnostico-terapeutico del paziente arruolato e i suoi costi a carico della società e del SSN dal tempo 0 (arruolamento), nei dodici mesi precedenti, laddove possibile, e nei 3 mesi successivi all'arruolamento. Verranno eventualmente integrate le informazioni presenti nel questionario con le indicazioni contenute nelle cartelle cliniche e nelle schede di dimissione ospedaliera (SDO).

La scheda raccolta dati sarà fornita ai Centri in formato Excel in modo da garantire una rapida compilazione da parte del medico ed un controllo contestuale da parte del monitor per le verifiche di eventuali errori o missing. Le informazioni al tempo 0 verranno raccolte dal medico preposto dal centro con il paziente o il genitore. Verrà contestualmente consegnata una scheda di raccolta di informazioni per i tre mesi successivi al tempo 0, che verrà poi letta dal paziente o genitore nel corso del followup telefonico a tre mesi

3.7 Analisi statistica

Lo studio in questione è di tipo osservazionale, si tratta quindi di uno studio non-sperimentale in cui la condizione in studio viene osservata nel corso del tempo ossia di uno studio epidemiologico in cui non viene effettuato alcun tipo di intervento e si lascia che la natura segua il suo corso.

Le elaborazioni statistiche saranno condotte utilizzando il software statistico SPSS (versione 14.0). Sulle variabili oggetto di studio sarà effettuata la statistica descrittiva utilizzando le tradizionali misure di sintesi numerica: media, deviazione standard DS, mediana, valore massimo e minimo per le variabili continue; distribuzioni di frequenza per le variabili categoriche. Per confrontare le medie delle variabili quantitative tra i gruppi di pazienti, stratificati sia per età (0/12 mesi; 1/4 anni; 5-10 anni; 11-14 anni; 15-17 anni; 18/30 anni; 31 -40 anni; maggiori di 40 anni) sia per gravità della malattia, sarà utilizzata l'analisi della varianza (ANOVA). La significatività statistica delle eventuali differenze nelle distribuzioni di frequenza sarà testata mediante l'applicazione del test *chi-quadro* (Pearson). Un valore del p-value <0.05 sarà considerato statisticamente significativo.

3.8 Sezione economica

Nella sezione economica del questionario verranno registrate le prestazioni erogate. Tale questionario raccoglierà dati relativi a ciascun paziente, e sarà suddiviso nelle seguenti parti: caratteristiche del paziente, prestazioni erogate (ricoveri, terapie, esami, presidi), costi relativi alle risorse non sanitarie consumate a causa del trattamento, quali ad esempio il trasporto del paziente e/o dei familiari presso l'ospedale o l'ambulatorio.

La valutazione economica verrà effettuata nell'ottica della Società, del SSN e del paziente.

La quantificazione dei costi diretti sanitari (farmaci, presidi, giornate di ospedalizzazione, ecc) verrà effettuata moltiplicando la singola risorsa per la relativa unità di costo.

4. Risultati

4.1 Caratteristiche socio demografiche

Sono pervenute 130 schede di cui 128 analizzabili, così ripartite sui Centri partecipanti: Roma 20, Milano Riguarda 48, Parma 60 .

I dati relativi alle caratteristiche socio demografiche del campione sono sintetizzati in Tab.1 e nelle figure successive. L'età media dei pazienti è di 13 anni (min.0 – max 29), e il campione è ugualmente ripartito tra maschi e femmine. La maggior parte del campione si colloca nella fascia di età scolare, di cui 22 pazienti nella fascia prescolare e 62 nella fascia 6-17, ripartiti in proporzioni simili tra scuola elementare e medie inferiori e superiori. La maggior parte dei genitori/caregiver che hanno risposto alle domande relative all'occupazione si trova impiegata fuori casa, in percentuale maggiore a tempo pieno.

4.2 Profilo clinico

Per quanto concerne il profilo clinico la diagnosi di spina bifida è avvenuta, nella maggior parte dei casi, nel postnatale, di cui 64 casi diagnosticati alla nascita e 33 nel periodo seguente. I casi diagnosticati nella fase prenatale sono 51 di cui 6 individuati all'epoca del controllo morfologico.

I livelli di gravità della lesione, così come definiti nei criteri di inclusione, sono ripartiti tra walking, 52 pazienti, walking con ortesi semplici 33, walking con ortesi complesse 16, e non walking 25. Il tipo anatomico rilevato è SB aperta nella maggior parte dei casi (84), SB chiusa (37) e SB occulta (3). Nel caso di Spina Bifida chiusa la malformazione rilevata nel maggior numero di casi è quella urinaria, seguita da quella anorettale.

I pazienti del campione analizzato hanno subito interventi neurochirurgici nel corso del primo anno di vita in 87 casi, di cui quasi la totalità per chiusura difetto, il 68% per posizionamento DVP.

La sintesi dei dati relativi al profilo clinico del campione è presentata in Tab.2

4.3 Aspetti economici

Nella tab. 3 sono riportati i costi diretti e indiretti sostenuti dalle famiglie dei pazienti che hanno partecipato allo studio ripartiti per visite, accessi al Pronto Soccorso, ricoveri, esami terapie farmacologiche, presidi e impatto della malattia sul lavoro/studio.

Come si evince in Tab.4 i costi per anno più significativi riguardano i presidi, per un totale di € 4.227, seguiti da ricoveri, € 898, visite € 492, altri trattamenti (fisioterapia, terapia occupazionale e addestramento alla cateterizzazione) € 318.

I costi per il trasporto ammontano a € 201, mentre significativo è il costo dell'assenza da lavoro del caregiver principale, pari a € 3.395.

I costi suddivisi per fascia di età indicano una spesa maggiore nella fascia 0-1 anno, che decresce nelle fasce successive e si stabilizza intorno a € 9.000 con la maggiore età.

Come riportato in tabe.5, per quanto concerne il rapporto costo-tipo anatomico il costo maggiore è rappresentato dai casi di Spina Bifida aperta (€ 11.774).

Per quanto riguarda il rapporto costo-grado di severità il costo maggiore è rappresentato dalla categoria dei pazienti "walking con ortesi complesse" (€ 14.469); la componente di costo maggiore è in questo caso rappresentata dai presidi e dalle visite.

In sostanza è da sottolineare che nelle quattro categorie di severità della lesione le componenti di costo diretto e indiretto variano significativamente. Si veda ad esmpoi la differenza relativa ai costi dei trattamenti tra le categorie waking e non walking.

Analogamente la componente di costo delle visite si differenzia tra walking e non walking, e walking con ortesi complesse (il doppio dei pazienti non walking).

In sintesi:

- I costi per anno più significativi riguardano:
 - » i presidi, per un totale di € 4.227,
 - » i ricoveri € 898,
 - » visite € 492,
 - » altri trattamenti (fisioterapia, terapia occupazionale e addestramento alla cateterizzazione) € 318
- i costi per il trasporto ammontano a € 201
- il costo dell'assenza da lavoro del caregiver principale è pari € 3.395.
- Il costo di Life-time è stimato in circa €. 360.000

5. Discussione

In Italia fino ad oggi non esistevano significativi lavori sull'impatto economico della Spina Bifida, sia per la difficoltà nel reperire dati e sviluppare studi e nel promuovere studi per individuare la dinamica dell'andamento dei costi della malattia sulla base dell'evoluzione del quadro epidemiologico e su dati di incidenza e di costo "lifetime" Ciò comporta conseguenti problemi nella proposizione di politiche sanitarie ottimali.

I dati emergenti da questo studio indicano che: Il costo medio totale per anno per un paziente con Spina Bifida è risultato di € 10.009. Il costo di Life-time è stimato in circa €. 360.000; tali costi tuttavia sono fortemente dipendenti dall'età del paziente. Utilizzando i dati dell'Istituto Superiore di Sanità (rapporto ISTSAN 06/34) è possibile stimare il costo sociale annuo totale sulla base dei dati emersi per SB pari a circa 60 Milioni di euro l'anno.

Il problema prioritario dei moderni sistemi sanitari:

- scarsità di risorse disponibili a fronte della generale e crescente domanda di salute
- Disporre di strumenti per confrontare,
- secondo criteri di efficacia e convenienza, progetti e tecnologie sanitarie,
- per identificare una scala di priorità in base alla quale indirizzare l'uso delle risorse pubbliche.

6. Conclusioni

L'analisi economica applicata alle attività sanitarie ha lo scopo di rendere evidente l'uso più efficiente delle risorse disponibili, non quello di ridurre la spesa. Dall'analisi economica emerge l'importanza di disporre di strumenti adatti sia per confrontare i dati di utilizzo di farmaci e di tecnologie sanitarie, sia per supportare il medico e gli operatori sanitari nell'ottimizzare le risorse a loro disposizione.

I dati emergenti da questo studio hanno messo in evidenza la necessità di ottenere in modo costante e capillare informazioni cliniche ed economiche riguardo il numero e la gravità dei casi con SB. Occorre investire in ricerca valutativa affinché questi strumenti diventino un riferimento costante nelle scelte dei medici e dei responsabili delle politiche sanitarie

Nonostante gli interventi neurologici riparativi, il danno al midollo spinale causa paralisi degli arti inferiori e degli sfinteri. Una disabilità complessa e permanente che richiede un'assistenza polispecialistica integrata continua. I malati di spina bifida e le loro famiglie vanno incontro a spese consistenti che, in base ai dati emersi possono essere di entità rilevanti nell'arco di vita del soggetto affetto da malformazione. L'attività di prevenzione appare in Italia in molti settori ancora sottostimata rispetto ad altri comparti di spesa. Si preferiscono programmi capaci di generare benefici il più possibile immediati, in grado di produrre consenso sociale intorno a chi li ha promossi.

E tuttavia è importante, come richiama la nuova campagna di comunicazione ASBI, inserire la valutazione della qualità di vita del malato di spina bifida e quanto sia l'impegno per la realizzazione verso una maggiore autonomia da parte del paziente con SB. In questo senso è cruciale il ruolo delle informazioni per la salute e il sistema sanitario, per investire in ricerca valutativa affinché questi strumenti diventino un riferimento costante nelle scelte dei medici e dei responsabili delle politiche sanitarie.

Bibliografia

- Ament A. - Evers S., Costs of illness studies in Health care: a comparison of two cases, Health Policy 26: 29-42, 1993
- Bootman JI - Townsend RJ. - McGhan WF., Principles of pharmacoeconomics, Harvey Whitney Books, 1991
- Bracco A., Gli studi di "*cost of illness*" in Italia: una *review* della letteratura Farmeconomia e percorsi terapeutici, 2001; 2 (4)
- Cappelli M, McGarth PJ, Daniels T, Manion I, Schillinger J. Marital quality of parents of children with spina bifida: a case-comparison study. J Dev Behav Pediatr. 1994 Oct;15(5):320-6.
- Drummond M., Cost of Illness Studies. A major headache, Pharmacoeconomics 2 (1): 1-4, 1992
- Drummond Mf, Methods for the economic evaluation of health care programmes, Oxford University Press, 1987
- Edwards M, Borzyskowski M, Cox A, Badcock J. Neuropathic bladder and intermittent catheterization: social and psychological impact on children and adolescents. Dev Med Child Neurol. 2004 Mar;46(3):168-77.
- Hodgson T. The state of the art of cost of illness estimates. Adv Econ Health Serv Res, 4: 129-164, 1983.
- Kinsman SL, Doehring MC., The cost of preventable conditions in adults with spina bifida. Eur J Pediatr Surg. 1996 Dec;6 Suppl 1:17-20.
- Koopmanschap MA. Cost of Illness studies: useful for health policy? Pharmacoeconomics 14 (2): 143-148, 1998.
- Macias MM, Saylor CF, Rowe BP, Bell NL. Age-related parenting stress differences in mothers of children with spina bifida. Psychol Rep. 2003 Dec;93(3 Pt 2):1223-32.
- Postma MJ, Londeman J, Veenstra M, de Walle HE, de Jong-van den Berg LT. Cost-effectiveness of periconceptional supplementation of folic acid, Pharm World Sci. 2002 Feb;24(1):8-11.
- Stewart MJ, Ritchie JA, McGrath P, Thompson D, Bruce B. Mothers of children with chronic conditions: supportive and stressful interactions with partners and professionals regarding caregiving burdens. Can J Nurs Res. 1994 Winter;26(4):61-82.
- Wallander JL, Venters TL. Perceived role restriction and adjustment of mothers of children with chronic physical disability. J Pediatr Psychol. 1995 Oct;20(5):619-32.
- Wiegner S, Donders J. Predictors of parental distress after congenital disabilities, J Dev Behav Pediatr. 2000 Aug;21(4):271-7.
- Zipitis CS, Paschalides C. Caring for a child with spina bifida: understanding the child and carer. J Child Health Care. 2003 Jun;7(2):101-12.