

Repositório ISCTE-IUL

Deposited in *Repositório ISCTE-IUL*:

2023-02-22

Deposited version:

Publisher Version

Peer-review status of attached file:

Peer-reviewed

Citation for published item:

Marques, S. C. S., Doetsch, J., Abate, G., Brødsgaard, A., Colombo, G., Cuttini, M....Barros, H. (2022). Compreender a participação em estudos de coorte europeus de crianças prematuras: pontos de vista de pais, profissionais de saúde e investigadores. *Cadernos de Saúde Societal*. 2, 27-52

Further information on publisher's website:

<https://www.iscte->

[iul.pt/assets/files/2022/06/27/1656322376983_Percursos_2_Saude_Societal_PT.pdf](https://www.iscte-iul.pt/assets/files/2022/06/27/1656322376983_Percursos_2_Saude_Societal_PT.pdf)

Publisher's copyright statement:

This is the peer reviewed version of the following article: Marques, S. C. S., Doetsch, J., Abate, G., Brødsgaard, A., Colombo, G., Cuttini, M....Barros, H. (2022). Compreender a participação em estudos de coorte europeus de crianças prematuras: pontos de vista de pais, profissionais de saúde e investigadores. *Cadernos de Saúde Societal*. 2, 27-52. This article may be used for non-commercial purposes in accordance with the Publisher's Terms and Conditions for self-archiving.

Use policy

Creative Commons CC BY 4.0

The full-text may be used and/or reproduced, and given to third parties in any format or medium, without prior permission or charge, for personal research or study, educational, or not-for-profit purposes provided that:

- a full bibliographic reference is made to the original source
- a link is made to the metadata record in the Repository
- the full-text is not changed in any way

The full-text must not be sold in any format or medium without the formal permission of the copyright holders.

#2



SAÚDE SOCIETAL

Percursos de Investigação do Iscte

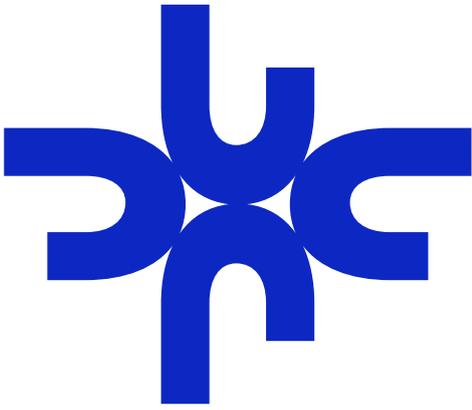
iscte

INSTITUTO
UNIVERSITÁRIO
DE LISBOA



health

#2



SAÚDE SOCIETAL

Percursos de Investigação do Iscte

iscte

INSTITUTO
UNIVERSITÁRIO
DE LISBOA



health

FICHA TÉCNICA

Título

Saúde Societal:
Percurso de Investigação do Iscte
Vol. 2

© 2022, **Iscte – Instituto Universitário de Lisboa**

Coordenação

Francisco Nunes, Elsa Pegado

Revisão de texto

Francisco Nunes e Elsa Pegado

Layout e Paginação

Gabinete de Comunicação Iscte

ISSN

2184-9676

Iscte Saúde

Iscte – Instituto Universitário de Lisboa
Avenida das Forças Armadas,
1649-026 Lisboa
Iscte_saude@iscte-iul.pt

Para citar este documento

Nunes, F. & Pegado, E. (Eds). (2022). *Saúde Societal: Percursos de Investigação do Iscte*.
Iscte-Saúde: Iscte – Instituto Universitário
de Lisboa.

Índice

- 5 Introdução**
Percursos de Investigação em Saúde Societal
Francisco Nunes e Elsa Pegado
- 11 Os contextos culturais influenciam a disseminação e a gravidade da pandemia da COVID-19?**
Margarida Duarte, Sérgio Moro, Catarina Ferreira da Silva
- 27 Compreender a participação em estudos de coorte europeus de crianças prematuras: pontos de vista de pais, profissionais de saúde e investigadores**
Sandra C. S. Marques, Julia Doetsch, Georgia Abate, Anne Brødsgaard, Grazia Colombo, Marina Cuttini, Pernille Pedersen e Henrique Barros, RECAP Preterm-WP6 QS Work Group
- 53 Medicamentos, culturas terapêuticas juvenis e consumos de performance: uma abordagem sociológica**
Noémia Lopes, Telmo Clamote, Hélder Raposo, Elsa Pegado, Carla Rodrigues
- 75 Função sexual, medicalização e género em Portugal: tradições e contradições**
Violeta Alarcão, Fernando Luís Machado, Alain Giami
- 97 Preditores de sexo sem preservativo e de comportamentos de saúde sexual numa amostra de pessoas portuguesas adultas e solteiras**
David L. Rodrigues, Diniz Lopes, Marco Pereira, Marília Prada e Margarida V. Garrido
- 117 Campanhas pictóricas sobre violência entre parceiros íntimos focadas em homens alvo de violência: uma análise de conteúdo sistemática**
Eduardo Reis, Patrícia Arriaga, Carla Moleiro, Xavier Hospital

147 Promoção de uma oferta equitativa no setor dos cuidados continuados integrados: desenvolvimento de uma abordagem multi-período e multi-objetivo para apoio ao planeamento da oferta de cuidados

Teresa Cardoso-Grilo, Mónia Duarte Oliveira, Ana Barbosa-Póvoa, Stefan Nickel

189 Avaliação de idosos institucionalizados por espirometria e condensado brônquico do ar exalado: efeitos da exposição ambiental

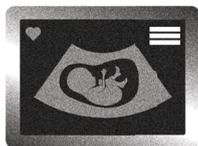
Joana Belo, Pedro Carreiro-Martins, Ana L. Papoila, Teresa Palmeiro, Iolanda Caires, Marta Alves, Susana Nogueira, Fátima Aguiar, Ana Mendes, Manuela Cano, Maria A. Botelho e Nuno Neuparth

203 Identificação do nível de cálcio com base em ecocardiografia. Um estudo exploratório sobre a estenose da válvula aórtica

Luis B. Elvas, Ana G. Almeida, Luís Rosario, Miguel Sales Dias, João C. Ferreira

231 Combatendo doenças e epidemias: Ricardo Jorge e a internacionalização da ciência portuguesa

Maria Antónia Pires de Almeida



Compreender a participação em estudos de coorte europeus de crianças prematuras: pontos de vista de pais, profissionais de saúde e investigadores

Sandra C. S. Marques, Julia Doetsch, Georgia Abate, Anne Brødsgaard, Grazia Colombo, Marina Cuttini, Pernille Pedersen e Henrique Barros, RECAP Preterm-WP6 QS Work Group

REFERÊNCIA ORIGINAL

Marques, S.C.S. *et al.* (2021). Understanding participation in European cohort studies of preterm children: the views of parents, healthcare professionals and researchers. *BMC Medical Research Methodology*, 21,19. <https://doi.org/10.1186/s12874-020-01206-5>.

RESUMO

Contextualização: A retenção de participantes em estudos de coorte é um grande desafio. É necessária uma melhor compreensão de todos os elementos envolvidos nos fenómenos de participação e de atrito em contextos particulares para desenvolver estratégias de retenção eficazes. O estudo visou alcançar uma compreensão aprofundada da retenção de participantes em coortes longitudinais centrando-se tanto nas perspetivas de participantes investigados quanto de investigadores, em três cenários sociogeográficos e culturais diversos.

Métodos: Este estudo utilizou uma triangulação de métodos multi-situados para recolher dados sobre estudos de coorte de crianças nascidas com menos

de 32 semanas de gestação na Dinamarca, Itália e Portugal. Incluiu uma metodologia visual colaborativa, grupos focais e entrevistas individuais semi-dirigidas com atores chave envolvidos nas coortes (pais, *staff*, profissionais de saúde, investigadores). Foi recolhida uma amostra intencional de 48 atores chave (n=13 na Dinamarca; n=13 na Itália; n=22 em Portugal). Na análise foi aplicada uma triangulação de análise temática fenomenológica com análise do discurso. Foram identificados, em vários níveis e etapas, elementos situacionais contextualmente específicos e transversais envolvidos nos fenómenos de participação e atrito nestas coortes infantis.

Resultados: Principais resultados incluíram: desafios situacionais que afetam o potencial e amplitude de possibilidades na implementação estratégica (ambiente geopolítico, mudanças sociais, modelos de financiamento da investigação); elementos situacionais relacionados com estratégias particulares que atuam como dissuasores (questionários postais) e facilitadores (múltiplas estratégias flexíveis, lembretes, interação regular); motivações maiores para aceitar participar e continuar na coorte (altruísmo/solidariedade e gratidão/sentido do dever de retribuir); principais desmotivadores para participar em ondas de acompanhamento/*follow-up* (fraco elo de ligação ao estudo, retorno de informação insuficiente); percepção parental de entrelaçamento dos acompanhamentos clínico e da investigação que atua quer como facilitador quer como dissuasor.

Conclusões: A utilização de uma abordagem multi-situada, focada na interação da experiência vivida dos indivíduos envolvidos, foi da maior utilidade para compreender a variabilidade da participação sob diferentes implementações estratégicas em contexto. Foram identificados elementos situacionais contextualmente específicos e transversais que atuam como fatores influenciadores na participação e no atrito das coortes.

Palavras-chave: Coortes europeias, Longitudinal, Crianças prematuras, Participação, Retenção, Estudo qualitativo multi-situado, Métodos visuais colaborativos.

CONTEXTUALIZAÇÃO

Os estudos de coorte de base populacional são um poderoso desenho de investigação para compreender o desenvolvimento do ciclo de vida humano e os mecanismos causais [1,2]. Ao longo dos anos, estes estudos têm contribuído significativamente para a nossa compreensão de tendências em matérias de doença, de fatores predisponentes e protetores e da suscetibilidade ao longo das transições do curso de vida.

A utilização crescente de redes de múltiplos estudos de coorte a longo prazo tem ainda o potencial de captar o valor e efeito diferencial de intervenções políticas e programáticas que operam dentro e fora do sector da saúde sobre a qualidade e equidade da saúde das populações [3].

As coortes são estruturas complexas que requerem o envolvimento persistente de participantes investigados, investigadores, financiamento e infraestruturas de apoio continuados para assegurar uma atenção contínua à pontualidade, atrito e qualidade da informação recolhida. Estes requisitos são indispensáveis para satisfazer padrões científicos elevados e permitir a tradução apropriada dos resultados em práticas clínicas e ações políticas. O seu sucesso depende, não só de um recrutamento inicial adequado de participantes, mas também da sua resposta continuada às subsequentes ondas de recolha de dados ao longo do tempo. A retenção de participantes é, por isso, uma preocupação dominante e um desafio bem reconhecido, sendo que a sua abordagem pelas coortes varia necessariamente de acordo com as especificidades internacionais de regulamentos de investigação e diferenças contextuais.

Os estudos científicos disponíveis das últimas décadas sugerem que, para maximizar a retenção de participantes, os investigadores devem considerar a utilização de múltiplas estratégias. Incentivos financeiros têm sido associados a um aumento da retenção proporcional ao valor do incentivo. Acréscimos relevantes na retenção foram também associados à oferta de locais e modos alternativos de recolha de dados, envio repetido dos questionários postais, cartas de aviso (lembretes) e chamadas telefónicas [4]. Estratégias direcionadas, tais como incentivos a quem não respondeu a ondas anteriores do estudo, foram também reportadas como rentáveis para a retenção. Adicionalmente, tem sido sugerido que o contacto regular entre investigadores e participantes reforça a ligação e identificação duradoura com o estudo [5].

Não obstante, tem sido demonstrado que a participação em estudos de coorte tem vindo a diminuir ao longo das últimas três décadas [6]. O conhecimento obtido sobre o fenómeno é limitado pelo pequeno número, concentração geográfica, escassos detalhes e descrição inconsistente das publicações que relatam estratégias de retenção implementadas, o que restringe saltos inferenciais ou generalização a outras populações e cenários. A utilidade subsequente das estratégias de retenção propostas pode portanto variar [7]. Recentemente, uma extensa revisão sistemática revelou que as estratégias de uso de incentivos de *follow-up* como o dinheiro, questionários repetidos e lembretes, as mais frequentemente utilizadas, foram associados a uma retenção mais fraca. A mera adição de mais estratégias de retenção pelas coortes também não pareceu resultar em taxas de retenção mais elevadas [8]. Por conseguinte, é necessária mais investigação primária, para expandir a população avaliada, diversidade de estudos e cenários para melhor compreender esta variabilidade.

Ainda que a compreensão sobre as motivações subjacentes e perspetivas dos participantes em estudos de coorte para diferentes cenários e populações seja essencial para informar os investigadores sobre métodos de recrutamento e retenção, a informação disponível é escassa [9]. Estudos longitudinais com elevadas taxas de retenção utilizam frequentemente abordagens personalizadas e estratégias de retenção adaptadas especificamente às suas coortes [10]. Sabe-se também que o processo de tomada de decisão comportamental é mais complexo, fluido e situacional do que aquilo que pode ser avaliado através da análise quantitativa de custo-benefício probabilístico, uma vez que depende das características pessoais, de respostas emocionais situacionais e da experiência vivida dos indivíduos [11].

Para melhor compreender os elementos situacionais que influenciam a retenção é necessário, portanto, conhecer as perceções e experiências de participantes diversificados em vários contextos e modelos de estudos de coorte com atenção à interação das experiências vividas nas posições de investigadores e investigados [12]. Este estudo visou alcançar uma compreensão aprofundada do fenómeno de retenção de participantes em coortes longitudinais, centrando-se na análise da interação de perspetivas, motivações e experiências vividas de participantes e investigadores, em três cenários europeus sociogeográfica e culturalmente diversos.

MÉTODOS

Participantes no projeto

O estudo foi desenvolvido no âmbito do projeto “Research on European Children and Adults born Preterm” (RECAP Preterm), que juntou 20 coortes de base populacional de 13 países europeus, reunindo dados de indivíduos nascidos muito prematuros e/ou com muito baixo peso ao nascer (VPT: <32 semanas de gestação /VLBW: <1500g) acompanhados desde o nascimento.

Neste artigo examinamos três coortes subordinadas aos estudos “Effective Perinatal Intensive Care in Europe” (EPICE) e “Screening to Improve Health in Very Preterm Infants in Europe” (SHIPS) do consórcio RECAP Preterm: i) EPICE/SHIPS-DK da Dinamarca (DK); ii) EPICE/SHIPS-IT da Itália (IT); e iii) EPICE/SHIPS-PT de Portugal (PT), que incluem crianças nascidas com menos de 32 semanas de gestação em 2011-12, recrutadas e acompanhadas sob protocolos de estudo pré-estabelecidos comuns. Os bebés VPT foram recrutados nas unidades de cuidados intensivos neonatais (UCIN) e acompanhados até à alta. Os sobreviventes das UCIN foram depois submetidos a *follow-up* aos 2 anos de idade através de questionários postais baseados em avaliações parentais [13]. O projeto SHIPS sucedeu ao EPICE e avaliou os coortes aos 5 anos de idade, recorrendo a: 1) questionários postais parentais;

2) entrevistas individuais semi-dirigidas presenciais a uma sub-amostra de 10-15 pais/ /cuidadores; 3) uma avaliação de desenvolvimento neurológico do subgrupo de crianças nascidas com menos de 28 semanas de gestação (Tabela 1).

Tabela 1. Implementação de métodos específicos em cada contexto

País	Coorte	Método	Participantes
Dinamarca	EPICE/SHIPS-DK	EI com profissionais da saúde e da investigação	<i>n</i> =2
		GF com profissionais da saúde e da investigação	<i>n</i> =4
		EI via telefone com pais*	<i>n</i> =7
Itália	EPICE/SHIPS-IT	GF com profissionais da saúde e da investigação	<i>n</i> =6
		2 GF com pais	<i>n</i> =5
		EI via telefone com pais*	<i>n</i> =2
Portugal	EPICE/SHIPS-PT	EI com profissionais da saúde e da investigação	<i>n</i> =3
		GF com profissionais da saúde e da investigação	<i>n</i> =7
		3 GF com pais (incluindo*)	<i>n</i> =11
		13 VS com pais	<i>n</i> =6
Entrevistas de <i>debriefing</i> de vídeos			<i>n</i> =5
Total:			<i>n</i> =48

* Pais que não responderam a uma ou mais ondas do estudo de coorte

EI= Entrevista Individual; GF= Discussão de Grupo Focal; VS= Video Stories

Desenho do estudo

A investigação foi conduzida de acordo com um protocolo de estudo previamente construído e que se encontra publicado (“Improving Understanding of participation and attrition phenomena in European Cohort Studies: Protocol for a Multi-situated Qualitative Study”) [14]. Foi utilizada amostragem não probabilística para obter uma amostra sociogeográfica heterogénea de pais destas crianças, incluindo representantes de organizações de pais (Ps) e profissionais envolvidos com as coortes VPT/VLBW tanto da área da investigação como da saúde (PRFs). Os participantes foram contactados e recrutados com a colaboração da equipa de investigação de cada coorte parceira.

O estudo implementou investigação qualitativa para análise fenomenológica com um enfoque ideográfico (representacional). Propõe, portanto, adquirir conhecimento sobre como uma dada pessoa, num contexto específico, dá sentido a um dado fenómeno, centrando-se nos significados de comportamento, narrativa e “experiência pessoal vivida” [16].

Foi utilizada uma metodologia multi-situada para a recolha de dados, *i.e.*, compreende tanto o conceito de multi-situado (ou multi-localizações) quanto o de

conhecimento situado [17]. Os “conhecimentos situados” implicam a significância das condições materiais, sociais e políticas que possibilitam conhecimentos múltiplos, parciais e diversos num dado momento, bem como a responsabilidade de os considerar igualmente válidos [18]. O enquadramento conceptual descrito em pormenor no protocolo de estudo já publicado [14] recorre a uma triangulação que inclui vários métodos de recolha de dados qualitativos: i) grupos focais, ii) entrevistas individuais semi-dirigidas, iii) uma metodologia visual reflexiva colaborativa (VideoStories). VideoStories é uma metodologia colaborativa que utiliza vídeos gerados por participantes e entrevistas de *debriefing* dos vídeos (conversacionais). Deriva do processo foto/videovoice fundamentado na fenomenologia e hermenêutica [19,20]. Pretendeu-se que os indivíduos refletissem mais profundamente e comunicassem a sua “experiência pessoal vivida” e os conhecimentos adquiridos como participantes de investigação científica através de uma forma alternativa de expressão. A adição deste método é particularmente vantajosa para potenciar redução de barreiras e inclusão de participantes difíceis de alcançar e para promover uma relação mais participativa. Os participantes beneficiam ao terem a oportunidade de se representarem a si próprios no processo de investigação e nas suas conclusões, enquanto os investigadores beneficiam com o seu envolvimento, potenciando a retenção e identificação com os estudos de coorte [12].

Recolha de dados

Seguindo o princípio epistemológico da valorização de conhecimentos multi-situados, os parceiros de investigação escolheram e combinaram de entre os métodos propostos os mais pertinentes aos seus contextos particulares e aos participantes visados. As subamostragens multi-situadas e as suas dimensões variaram, pois, dentro dos limites pré-estabelecidos pelo protocolo partilhado. A amostra total que contribuiu para estes resultados incluiu 48 participantes (n=13 na Dinamarca; n=13 em Itália; n=22 em Portugal): 26 pais de crianças participantes de 6-8 anos de idade, incluindo indivíduos que não tinham respondido a ondas anteriores dos estudos, e 22 profissionais (**Tabela 2**). A amostra foi maioritariamente (83,3%) do género feminino: PRFs (n=20/22) e Ps (n=20/26); as idades variaram entre 25 e 65 anos (PRFs: 25-65 anos e Ps: 25-50 anos).

Seleccionámos uma abordagem exploratória para potenciar a livre emergência de novos conceitos nas discussões. O moderador/entrevistador foi, portanto, tão pouco diretivo quanto possível [21]. Um guia comumente definido para abordagem de 6-8 temas chave foi utilizado como estímulo da discussão e apenas se os temas não fossem espontaneamente abordados pelos participantes. Em todos os cenários, foi primeiramente conduzida uma discussão de grupo focal com profissionais, servindo também para explorar e ajustar para subtemas específicos a sondar em mais

entrevistas de grupo e/ou individuais semi-dirigidas com outros profissionais e pais (ver Additional file 1, no artigo original). Grupos focais adicionais, entrevistas individuais e/ou VideoStories foram conduzidos até ser atingida a saturação. Aos participantes do VideoStories foi solicitada a tarefa comum de gerar 3-4 vídeos curtos ao longo de um período de tempo idêntico, após o qual foi realizada uma entrevista de *debriefing* com a duração média de 90 minutos. Os grupos focais duraram em média 2 horas com pelo menos dois investigadores presentes e as entrevistas individuais tiveram uma duração média de 30 min.

Os dados foram recolhidos entre Abril de 2018 e Março de 2019 na língua oficial de cada país. Foi obtido o consentimento explícito por escrito de todos os participantes. Os dados foram gravados em áudio, transcritos e traduzidos para inglês.

Análise de dados

Foi utilizada uma triangulação de análise temática fenomenológica com análise do discurso. As representações visuais e verbais foram ambas tratadas como narrativas. O princípio seguido é o da estratégia emergente, permitindo que o método siga a natureza dos próprios dados, e que pode surgir ou mudar no decurso da análise. Assim, os subconjuntos de dados foram classificados e categorizados à mão por uma equipa de dois investigadores liderada por um cientista social experiente neste tipo de análise de dados multimodais. A análise temática foi utilizada para determinar a emergência de padrões ou eixos de representação a partir de temas e padrões recorrentes (formações discursivas), bem como a de desvios relevantes. Temas e eixos de representação emergentes em várias fases foram discutidos, refinados e verificados com as equipas de investigação parceiras nos vários locais. Finalmente foram agrupados dois tipos de temas: i) temas coletivos, que ocorreram para um grande número de participantes em diferentes contextos; e ii) temas contextualmente específicos, únicos para determinados indivíduos ou contextos. Informação adicional para triangular os resultados destes dados foi recolhida de: equipas de gestão das coortes através de um questionário interno, reuniões e correio eletrónico; publicações de estudos das coortes. Uma análise interpretativa final dos elementos relevantes envolvidos nos fenómenos de participação e atrito, transversais e particulares às coortes em estudo, foi realizada através da aplicação genérica do modo de contingência de conteúdos.

RESULTADOS

Os resultados expõem os principais elementos envolvidos nos fenómenos de participação e atrito e interação de pontos de vista/perspetivas encontrados. Seguindo o

Tabela 2. Recrutamento e ondas de acompanhamento do estudo EPICE/SHIPS nas três coortes: estratégias de implementação e participação

	PT – Coorte Portuguesa Regiões: Norte; Lisboa e Vale do Tejo	IT – Coorte Italiana Regiões: Emilia Romagna; Marche; Lazio	DK – Coorte Dinamarquesa Regiões: Funen; Zealand; Lolland; Falster
	Participação:	Participação:	Participação:
Estudo EPICE			
Recrutamento nascimento/ <i>baseline</i> 2011/12	· presencial por neonatologistas das unidades hospitalares onde os bebés nasceram/foram cuidados. (1. dados abstraídos dos registos médicos)	· presencial por neonatologistas das unidades hospitalares onde os bebés nasceram/foram cuidados. (1. dados abstraídos dos registos médicos)	· presencial por neonatologistas das unidades hospitalares onde os bebés nasceram/foram cuidados. (1. dados abstraídos dos registos médicos)
	544*/607 ad (90%) (n=879 nados vivos e mortos)	975 /975 ad (100%) (n=1326 nados vivos e mortos)	286/286 ad (100%) (n=441 nados vivos e mortos)
F-up 1 ano ic 2012/13	1. questionário parental por telefone. (84%)		
F-up 2 anos ic 2013/14	1. questionário parental postal (e para retorno postal). (75%)	1. questionário parental postal e/ou por email (e para retorno postal ou email) ou por telefone se necessário. (75%)	1. questionário parental postal (e para retorno postal). (63%)
F-up 3 anos 2014/15	1. questionário parental por telefone. 2. questionário parental (3d diário alimentar + CBCL) postal (e para retorno postal). (87%)		
F-up 4 anos 2015/2016	1. questionário parental por telefone. (83%)		
Estudo SHIPS			
F-up 5 anos 2016/17	1. questionário parental (no mesmo local em que as crianças estão a ser avaliadas presencialmente). 2. avaliação de desenv. neurológico por equipa de psicólogos e enfermeiros em localizações alternativas (resultados enviados aos pais ou aos pediatras conforme preferência e referênciação). 3. entrevista presencial semi-dirigida a amostra de 10-15 pais do subgrupo EPT que completou questionários, em localizações alternativas. n=12	1. questionário parental postal e/ou por email (e para retorno postal ou email) ou por telefone se necessário. 2. avaliação de desenv. neurológico do subgrupo EPT por equipa de psicólogos em localizações alternativas (resultados entregues aos pais e referênciação). 3. entrevista presencial semi-dirigida a amostra de 10-15 pais do subgrupo EPT que completou questionários, em localizações alternativas. n=14	1. questionário parental postal (e para retorno postal). 2. avaliação de desenv. neurológico do subgrupo EPT por equipa de psicólogos e fisioterapeutas em localizações alternativas (resultados entregues aos pais e referênciação). Participação: 42/52 EPT (81%)
	435/533 (82%) (EPT n= 113) (82%)	692/975 (71%) 135/223 EPT (60,5%)	152/286 (53%)

Fonte: Equipa de investigação da EPICE/SHIPS-PT, Dez 2019.

Equipa de investigação da EPICE/SHIPS-IT, Nov 2019.

Equipa de investigação da EPICE/SHIPS-DK, Set 2019.

*52 pais não foram convidados a participar; 11 recusaram participar em subseqüentes F-up. ad = alta para domicílio; EPT = prematuro extremo; F-up = *Follow-up*; ic = idade corrigida

princípio epistemológico de transmitir conhecimentos situados, os resultados são situados (contextualizados/interrelacionados) nas condições envolventes relevantes que permitiram a sua construção.

EPICE/SHIPS: Um Estudo Europeu, Três Abordagens Diferentes

As perdas de participantes por falhas na localização, contacto ou resposta devidas a procedimentos de acompanhamento exigentes ou inadequados emergiram como principal preocupação para os profissionais envolvidos em todos os contextos (n=22/22). As três equipas de gestão das coortes implementaram, de modo diverso, múltiplas estratégias para interagir com os participantes e aplicar localmente os protocolos partilhados EPICE e SHIPS, tendo modificado e adaptado os procedimentos estratégicos de acompanhamento da coorte para maximizar a retenção. Na EPICE/SHIPS-PT, a frequência do acompanhamento estratégico foi aumentada para anual e também alargada a avaliação de desenvolvimento neurológico aos 5 anos a toda a coorte VPT, combinando, no mesmo momento e local, a administração do questionário parental. A coorte DK, embora realizando ambos os protocolos de acompanhamento pré-estabelecidos, não participou na avaliação de 5 anos através de entrevistas presenciais (Tabela 2).

Os sistemas taxonómicos disponíveis para categorizar as estratégias de retenção variam. Por um lado, refletindo a inadequação da classificação daquelas que servem múltiplos propósitos e, por outro lado, revelando-se em inconsistências generalizadas nos resultados. O alcance e a divergência de procedimentos especificamente destinados a maximizar a retenção usados pelas três coortes foram aqui agrupados em quatro domínios, em consonância com Teague *et al.* (2018) [8].

- (i) “Estratégias de redução de barreiras” incluíram: assistência com custos de correio (PT; DK; IT); flexibilidade para contacto telefónico e agendamento à noite (DK) e fim-de-semana (PT; IT); oferta de métodos alternativos para recolha de dados, como administração de questionários por telefone (PT; IT) e a sua devolução em formato digitalizado (IT). Na onda de seguimento dos 5 anos, realizou-se uma avaliação de desenvolvimento neurológico da criança (PT; IT; DK) e entrevistas parentais presenciais (PT; IT). Foram oferecidas aos participantes avaliações em casa ou perto de casa e *catering*/refrescos para aqueles que se deslocaram (PT; IT; DK). Foi também oferecida assistência com transporte (reembolso de custos) e alojamento às famílias que viviam fora da cidade ou a pedido (IT).
- (ii) “Estratégias de fortalecimento de vínculo” incluíram um *website* comum dos projetos europeus em língua inglesa com notícias relacionadas e publicações

e, na onda dos 5 anos, também *feedback* individual sobre a avaliação de desenvolvimento neurológico (relatório individual). Na coorte IT foi oferecido um livro infantil de presente às crianças no final da avaliação presencial ou enviado por correio. Na coorte PT, foi anualmente enviado um postal de aniversário às crianças, um livro sobre os resultados do estudo EPICE-PT aos pais em 2015, uma *newsletter* (embora não regular) em português, comunicações por correio eletrónico esporádicas sobre aparições nos meios de comunicação social relacionadas com a coorte e organizados dois eventos de reunião dos participantes no Porto e em Lisboa.

- (iii) “Lembretes” e “outros incentivos estratégicos à participação na onda de estudo” incluíram lembretes por chamadas telefónicas, cartas, *email* e/ou mensagens de texto para responder aos questionários (PT;IT;DK). Incentivos financeiros, como dinheiro, *vouchers* ou recompensas para completar as avaliações solicitadas em ondas de recolha de dados, não foram utilizados por nenhum dos coortes.
- (iv) “Estratégias de localização e contacto” incluíram maioritariamente: correio postal, eletrónico e/ou chamada telefónica, recorrendo à base de dados das coortes e procurando manter os dados de contacto atualizados para cada participante. Em face de contactos mais difíceis, foi também utilizado o recurso a outros localizadores de bases de dados, de acordo com as possibilidades permitidas pelos regulamentos nacionais e sistemas disponíveis (PT;IT;DK). A coorte PT maximizou o procedimento de atualização anual de múltiplos modos de contacto, através da referida estratégia de monitorização anual (Tabela 3).

Desafios situacionais para as equipas das coortes EPICE/SHIPS. As perspetivas de profissionais e pais convergiram, em todos os cenários, sobre as características desejáveis das estratégias para contactar e interagir com os participantes da coorte (PT;IT;DK). Como reportado: a) flexibilidade para conciliar agendas, oferecendo métodos e períodos de contacto alternativos; b) disponibilidade para aproximar o estudo aos participantes, facultando localizações e mediadores de linguagem apropriados e assistência com despesas incorridas; c) fortalecimento do vínculo, através da partilha dos resultados da investigação com os participantes e promoção de pontes de comunicação.

Contudo, desafios situacionais que afetam o potencial e alcance das estratégias implementadas foram relatados por profissionais de todas as coortes, ainda que as equipas de investigação tenham implementado de algum modo abordagens sensíveis ao seu contexto (PT;IT;DK).

Como descreveram, o ritmo rápido das mudanças sociais relativas aos sistemas de comunicação desde o recrutamento da coorte em 2011-12 tem dificultado

Tabela 3. Estratégias de retenção implementadas pelas coortes no decurso dos estudos

Estudos EPICE/SHIPS			
Recrutamento nascimento/ <i>baseline</i> : 2011/12; <i>follow-up</i> mais recente em todas as coortes aos 5anos: 2016/17			
Estratégias de Retenção	Coorte PT	Coorte IT	CoorteDK
(i) "Estratégias de redução de barreiras"			
> assistência com despesas postais	✓	✓	✓
> flexibilidade para contacto telefónico e agendamento	✓	✓	✓
> oferta de métodos alternativos para a recolha de dados	✓	✓	✓
> oferta de avaliações em casa ou mais perto de casa	✓	✓	✓
> oferta de <i>catering</i> / refrescos	✓	✓	✓
> assistência com custos de transporte (ocasionalmente)		✓	
(ii) "Estratégias de fortalecimento de vínculo"			
> <i>website</i> europeu dedicado comum (língua inglesa)	✓	✓	✓
> notícias relacionadas e documentos do estudo publicados no <i>website</i>	✓	✓	✓
> partilha de <i>feedback</i> individual sobre os resultados do estudo (de desenv. neurológico aos 5 anos)	✓	✓	✓
> livro sobre os resultados do estudo EPICE enviado aos pais (na língua do país)	✓		
> livro infantil oferecido às crianças (<i>follow-up</i> aos 5 anos)		✓	
> cartão postal de aniversário enviado às crianças (anuais)	✓		
> <i>newsletter</i> (na língua do país)	✓		
> <i>emails</i> sobre aparições nos meios de comunicação relacionadas com a coorte (esporádicos)	✓		
> eventos de reunião com investigadores / outros participantes	✓		
(iii) "Lembretes/outros incentivos estratégicos à participação na onda de estudo"			
> lembretes por chamadas telefónicas	✓	✓	✓
> cartas de aviso	✓		✓
> lembretes por <i>email</i> e/ou <i>sms</i>	✓	✓	
> incentivos em dinheiro / incentivos com cupões / recompensa específica pela resposta à onda de estudo			
(iv) "Estratégias de localização e contacto"			
> localização via base de dados da coorte por correio postal e contactos alternativos: correio eletrónico e/ou telefone	✓	✓	✓
> localização alternativa via sistema de base de dados dos cuidados de saúde/institucional	✓	✓	✓
> localização via atualização de contactos pelo próprio (na monitorização anual)	✓		
> localização através de registos públicos / pontos focais da rede da coorte	✓	✓	✓

a eficiência dos sistemas de localização disponíveis para reconectar com os participantes da coorte após uma perda de contacto. Dois obstáculos foram salientados por todos os profissionais como determinantes: a) intensificação da informatização de bases de dados e processos de trabalho com substituição de sistemas por vezes assíncronos e discordantes; b) aumento da dificuldade de acesso a dados pessoais e de possibilidade de articulação de registos devido a restrições de legislação e regulamentos (PT;IT;DK). Os impactos da abolição progressiva de telefones fixos residenciais e a crescente dependência de contactos móveis/eletrónicos independentes de endereços físicos na última década foram também destacados nos contextos das coortes IT e PT.

(...) as famílias mudam-se frequentemente, pelo que é um problema encontrar o endereço, é necessário contactar o registo civil; os números de telemóvel mudam frequentemente e a linha fixa já não existe; muitas vezes as famílias mudam de cidade ou de país, especialmente os estrangeiros, pelo que a recuperação das suas informações pode ser muito complicada. Para resolver este problema, podemos aceder à verificação do registo, através do registo municipal ou da base de dados regional, tornando o processo muito lento (...) Mesmo os endereços de correio eletrónico podem ser um obstáculo (PRF5-IT).

(...) se tivéssemos tido um sistema [base de dados de saúde] comum em todo o país, teria sido mais fácil (...) A abertura dos processos dos doentes não é permitida agora sem o seu consentimento. (...) para descobrir a língua que a família fala ou... não se pode simplesmente procurar no nome e no endereço. Assim sendo, é um desafio enviar questionários adequados na língua certa às famílias (PRF4-DK).

Estas crianças foram recrutadas nas UCIN, que são poucas e centralizadas, e por isso podem localizar-se a longas distâncias do local de residência dos participantes. Os profissionais relataram como muitos participantes se tornaram difíceis de localizar após a alta ou o fim do acompanhamento clínico naquele hospital (PT; IT; DK). Em todos os cenários foi partilhada também a preocupação comum de que as pessoas de grupos minoritários e vulneráveis estariam em maior risco de perda de acompanhamento. Mesmo quando recuperado o contacto, devido a limitações de recursos humanos e financeiros, tem sido difícil providenciar métodos sensíveis ao seu contexto, como por exemplo: apoiar viagens de longa distância, envolver intérpretes, alargar o tempo de resposta e locais alternativos. Embora destacado em todos os cenários, este desafio foi particularmente enfatizado na coorte IT, a maior das coortes.

A somar a estas barreiras contextuais, foi também manifesto que as informações do estudo fornecidas aos participantes nas ondas de recrutamento e acompanhamento não anteciparam habitualmente interações futuras a longo prazo, uma vez que estas estão dependentes de financiamento prospectivo. O consentimento

informado para participar na investigação tem que ser limitado a um protocolo de estudo enquadrado pelo projeto de financiamento a curto prazo. A dependência de financiamento impermanente restringiu ainda mais as possibilidades de manter um contacto regular entre as ondas de estudo e de satisfazer as expectativas dos pais na promoção de mais estratégias de fortalecimento de vínculo.

Elementos Envolvidos na Decisão Inicial de Participar em Estudos de Coorte de Nascimento VPT/VLBW

Motivações

Altruísmo/solidariedade e gratidão/sentido do dever de retribuir. A estratégia de recrutamento de recém-nascidos nas UCIN durante o internamento foi muito eficaz, tal como reflete o elevado nível de recrutamento alcançado: 90-100% de todos os indivíduos nascidos VPT com alta clínica da UCIN foram recrutados para o estudo EPICE (coorte DK n=286/286; coorte IT n=975/975; coorte PT n=544/607).

Dois grandes eixos representacionais emergiram como concorrentes enquanto principais fatores de motivação subjacentes à elevada resposta positiva por parte dos pais (PT;IT;DK): a) “altruísmo/solidariedade” e b) “gratidão/sentido do dever de retribuir”. “Altruísmo/solidariedade” associado ao sentimento positivo de contribuir para melhorar conhecimento médico e práticas de cuidados de saúde em benefício futuro de bebés prematuros e suas famílias. “Gratidão/sentido do dever de retribuir” dirigido aos profissionais de saúde que cuidam dos seus recém-nascidos em circunstâncias emocionalmente difíceis ou redirecionado para outros parceiros sociais que possam beneficiar desse ato.

A minha é uma escolha de gratidão, para dar a minha contribuição para a investigação que ajudará as crianças prematuras nascidas depois da minha, porque beneficieei dela e, portanto, quero dar algo em troca (P4-IT, mãe).

Essas duas principais motivações subjacentes à participação foram comunicadas mesmo por pais que não responderam a nenhuma das ondas de estudo subsequentes.

Vulnerabilidade situacional de se tornar pai de uma criança VPT/VLBW.

Na UCIN, os papéis sobrepostos de recrutador e neonatologista que cuida destes recém-nascidos VPT motivaram os pais a confiar e a consentir no seu recrutamento. Tanto os pais inquiridos como os neonatologistas envolvidos reconheceram que a vulnerabilidade situacional dos pais durante essas circunstâncias angustiantes atuou como elemento influenciador adicional na sua tomada de decisão.

Recrutámo-los nos primeiros dias de vida. (...) Dizendo que são bebés especiais e que só conseguimos melhorar as nossas práticas se soubermos o que acontece a estes bebés. E eu acho que nessa altura, os pais ouvem tudo, absorvem tudo, mas, ao mesmo tempo, a situação emocional é de tal maneira forte que não se lembram do que responderam (...) quando a gente depois fala mais tarde, eles dizem: “Sim, tenho uma ideia do que me falaram” (PRF3-PT).

A experiência vivida de vulnerabilidade situacional no momento do recrutamento emergiu transversalmente nos relatos dos pais nos três cenários, denunciada pela expressão recorrente de sentimentos de “pânico”, “sofrimento”, “choque”, “trauma”, “desespero”, “arrasado” e “dificuldade em aguentar/superar”. Estas descrições foram associadas a declarações sobre não recordar ou recordar vagamente o recrutamento ou sobre não ter retido informações acerca da natureza prospectiva do estudo. Estavam gratos pelos cuidados médicos prestados aos seus recém-nascidos e assim confiaram na comunidade médica/científica quando lhes foi pedido que retribuíssem.

(...) Vindo do médico, disse logo que sim. Não pedi o consentimento à mãe, disse que sim. Naquela altura, nem pensar em preocupá-la com responder a questionários, preencher relatórios, (...) [informação sobre qual seria o estudo, os seus objetivos?] Zero! Naquela fase inicial: zero! (...) Foi um pouco como aquilo que os outros pais disseram. Foi muito difícil gerir esta situação. O meu filho nasceu numa Urgência de um hospital e, como deve compreender, fiquei extremamente... (emoção contida) entrei em pânico, zangado também. (...) e foi graças a eles que o meu filho sobreviveu (P11-PT, pai).

Elementos Envolvidos na Decisão de Participar em Subsequentes Ondas dos Estudos

Motivações

Mesmas motivações principais para aceitar o recrutamento e continuar a participar. A análise das narrativas dos pais mostrou uma continuidade nas principais motivações para participarem na coorte e continuarem a aceitar os convites para as ondas de estudo de acompanhamento. “Altruísmo/solidariedade” e “gratidão/sentido do dever de retribuir” persistiram a ser manifestadas como as principais razões concomitantes para continuar a participar (PT; IT; DK). Em Portugal, todos os pais (n=12) reforçaram ainda que se não fosse a sua motivação para o fornecimento de dados em benefício de outros pais e crianças, já teriam desistido.

Entrelaçamento dos acompanhamentos clínico e da investigação. A participação nestes estudos de coorte foi encontrada inextricavelmente ligada às experiências

vividas pelos pais de um nascimento VPT e dos cuidados de saúde e apoio que lhes têm sido prestados. Como o recrutamento foi realizado numa unidade hospitalar, as experiências de monitorização de saúde clínica e de investigação da sua criança foram percebidas como interligadas por todos os pais, mesmo por aqueles que expressaram estar conscientes da sua independência (PT;IT;DK).

Compreendemos a diferença após algum tempo, e se não tivéssemos perguntado, teríamos permanecido em dúvida. (...) Descobrimos mais tarde que o seguimento clínico é algo diferente (...) é bom para a criança, mas é uma loucura que não sirva também para a investigação sobre estas questões (...), o nosso filho fez muitos tratamentos experimentais com a ideia de que quaisquer dados recolhidos que pudessem ajudar outras crianças seria uma coisa boa (P5-IT, pai).

É interessante que esta percepção de entrelaçamento que tinha facilitado o recrutamento se tenha convertido posteriormente em dissuasor para participar em ondas de *follow-up*. Todos os pais (n=26/26) expressaram dificuldades em viver a experiência de conjugar marcações clínicas, terapias e tratamentos intensos obrigatórios ao longo dos anos. A expressão de sentimentos persistentes de medo e de sobrecarga concorreram nas suas narrativas com a queixa de faltas de apoio psicológico e de cuidados de saúde adequados às mães e família, particularmente nos dois primeiros anos pós-natais (PT;IT;DK). Aquelas mães que não responderam a ondas de *follow-up* (n=7 DK; n=2 IT) acrescentaram ainda descrições de experiências vividas de ser mãe de gémeos ou mais filhos, de crianças com distúrbios/défices graves e de monoparentalidade.

(...) talvez a equipa [médica] pudesse ter-me atribuído um psicólogo ou algo assim. (...) Eu passei muito mal e também passei um mau bocado quando chegámos a casa e ainda estava muito triste. (...) quando estás em casa e os meninos têm quase 1 ano e eu ainda não conseguia falar sobre isso sem chorar, isso significa que tudo estava absolutamente errado cá dentro, acho eu (P1-DK, mãe de gémeos).

Ao argumentarem sobre os motivos da sua decisão, a maioria referiu a importância de participar em benefício de outros. Enquanto uma destas mães alegou não ter recebido a solicitação para participar no evento de *follow-up*, a maioria afirmou nem sequer se lembrar de não ter respondido. Segundo elas, os investigadores deveriam ter insistido (outra vez e por outra via) na obtenção da sua resposta positiva (n=7/9). A sua não participação foi explicada por “não restar mais energia” ou “negligência” devido à persistência da sua experiência vivida de maternidade angustiante e exigente (n=8/9).

Expectativa de benefício direto para a criança. A reforçar a relevância da percepção deste entrelaçamento, foi encontrado um desvio particular aos relatos de alguns pais

no contexto italiano. Três pais que afirmaram claramente, durante a discussão do grupo focal, não estarem conscientes da independência dos estudos de coorte relativamente ao acompanhamento clínico dos seus filhos, apontaram a expectativa de benefício direto para a criança como outra motivação principal subjacente à sua participação até àquele momento. Notavelmente, todos estes pais terão também manifestado a sua frustração/falta de confiança no sistema de saúde.

Dissuasores motivacionais

Dois grandes eixos de representação sobre fatores desmotivantes para a participação foram abstraídos dos relatos dos pais.

Fraco elo de ligação e de identificação com os estudos de coorte EPICE/SHIPS.

Todos os pais revelaram um fraco sentimento de vínculo e de identificação com a coorte, embora menos evidente em Portugal, onde foi implementada a mais intensa e extensa interação com as famílias. As principais sugestões dos pais para melhorar o elo de ligação e de identificação com os estudos da coorte: 1) aumento da visibilidade da coorte e do seu acompanhamento através de publicidade nos meios de comunicação social e entre profissionais de saúde; 2) um *website* regularmente atualizado, com os resultados da investigação da coorte e informação sobre a prematuridade, na língua de cada país envolvido; e 3) comunicação regular via *email* ou *newsletter* e maior consistência na interação (DK;IT;PT). Outras sugestões foram particulares a determinadas coortes.

Na Dinamarca, várias mães (n=4/7) sugeriram que a equipa de investigação deveria fazer uso do conhecimento obtido para apoiar os pais através da partilha de ferramentas sobre como ajudar/integrar crianças nascidas VPT/VLBW no jardim-de-infância e na escola. Estas mães expressaram a sua frustração pela falta de apoio profissional para aumentar a sensibilização e compreensão entre professores, educadores, e “*commune*” (conselho comunitário) sobre os porquês dos seus filhos serem tão “teimosos”, “sensíveis”, “explosivos”, “desconcentrados e desatentos”.

Em Itália, quase todos os pais (n=6/7) sugeriram que os eventos de acompanhamento da coorte deveria incluir avaliações clínicas das crianças. Todos sugeriram ou que se sincronizassem com as consultas clínicas ou que se oferecesse prioridade de acesso a uma consulta como incentivo para aumentar o envolvimento dos participantes na coorte. O descontentamento transversal a todos os contextos, com a falta de apoio adequado a pais de nascidos VPT/VLBW, foi mais forte e multifocal na coorte IT.

(...) talvez fosse útil oferecer (...) uma forma preferencial [de acesso] se se precisar de uma consulta [de especialidade], para ganhar tempo. As listas de espera são monstruosas, por isso talvez fosse útil, uma vez que estas crianças precisam de um pouco mais de cuidado (P7-IT, mãe).

Em Portugal, os pais destacaram os procedimentos presenciais, *i.e.* de “proximidade” para se familiarizarem com os “rostos por detrás do estudo” como os principais facilitadores para fortalecer o elo de ligação e identificação com a coorte (n=6/12). A frequência de interações presenciais, com investigadores e outros participantes, promovidas no passado foram declaradas como insuficientes para garantir um envolvimento duradouro.

Insuficiente informação sobre o estudo e os seus resultados. Como também reconhecido por profissionais, a maioria dos pais confessou não ter retido qualquer informação no momento de recrutamento ou ter esquecido a vertente prospectiva do estudo. Informação insuficiente no recrutamento e inadequação em volume e frequência de outras informações partilhadas foram apontadas por todos os pais como fatores maiores de desencorajamento à participação e motivo para se sentirem desligados (DK;IT;PT). Sobre as suas expectativas de aumento de partilha regular de informação, as preferências manifestadas variaram desde mais testemunhos reais de outros pais, informação estatística sobre a coorte, conclusões curtas sobre os resultados comparados entre países, até outras informações relevantes tais como políticas, legislação, e “ferramentas de ajuda” para os pais.

[O feedback é importante para dizer sim no futuro] porque eu sentiria uma motivação se pudesse ver o resultado daquilo para o qual contribuí. Se não me disserem nada, então, eu sinto que não foi usado para nada. Não sei se alguma coisa sai dali ou se tem alguma relevância (P5-DK, mãe).

Elementos situacionais relacionados com procedimentos estratégicos particulares

Os relatos dos participantes revelaram uma variedade de elementos envolvidos no processo de ponderação das tomadas de decisão para participar em diferentes eventos específicos das ondas de estudo. Tal como percecionado pelos profissionais, todos os pais concordaram que a utilização de estratégias múltiplas e flexíveis/adaptadas para contacto e interação favorece a sua participação (DK;IT;PT). Como descrito anteriormente, o alcance e a diversidade de procedimentos e estratégias com vista a maximizar a retenção diferiram entre as coortes. A coorte PT promoveu a interação mais intensiva e variada com os participantes ao longo do tempo e reportou a maior participação na última avaliação de toda a coorte (PT:82%; IT:71%; DK:53%).

A estratégia particular à coorte PT de envio anual de postal de aniversário às crianças foi introduzida espontaneamente nas discussões, tanto pelos profissionais como pelos pais, como a de mais bem-sucedida implementação. Tal como manifestaram,

apresentou uma regularidade adequada para servir a uma série de objetivos de gestão da coorte: recompensa de participação; reforço do elo de ligação com pais e crianças; lembrete regular da continuidade do estudo; e, atualização regular de contactos postais. A maioria dos pais expressou que os seus filhos a encaravam como uma iniciativa a eles dirigida – uma prenda para si.

[Os postais] estão todos lá no frigorífico. Ela adora. Vem sempre depois do seu aniversário, mas [ela] adora receber os postais (P6-PT, mãe).

Considerando as proporções de participação nos *follow-up* comuns a todas as coortes, os questionários parentais estruturados enviados e a serem devolvidos pelo correio foram associados a uma resposta mais fraca em todas as coortes. Na Dinamarca, onde não foi oferecida alternativa, observou-se a participação mais baixa (**Tabela 2**). As mães desta coorte que não responderam às ondas de *follow-up* manifestaram que o uso deste método para recolha de dados foi o fator determinante para a sua decisão (n= 3/7).

Nem me lembro de dizer que não (...) por isso, a única razão é mesmo que nunca cheguei a fazê-lo. É porque tens de preencher algo e depois tens de o enviar de volta por correio e algo do género, acabo por não o conseguir fazer. (...) deveria ser feito num website, do tipo, em que basta abrir o questionário, fazê-lo ali, pressionar enviar e fica enviado (P3-DK, mãe).

A maioria dos pais declarou que os questionários postais foram um fator desmotivante para participar (DK;IT;PT). Sugeriram um procedimento mais flexível: presencial, por telefone ou formulário eletrónico, e assegurar que os questionários sejam curtos e claros (n=5/7 DK; n=2/3 IT; n=11/12 PT). Foi também aconselhada a promoção de mais oportunidades para respostas abertas e contribuições “mais pessoais”, porque são “mais favoráveis para esclarecer dúvidas”.

Todas as equipas recorreram a “lembretes” para melhorar a participação nos *follow-up* (DK;IT;PT). Os pais que responderam a todas as ondas de estudo expressaram que o recurso a lembretes e contactos telefónicos como tem sido habitual nas suas coortes eram facilitadores da participação, enquanto aqueles que não participaram em algum evento passado manifestaram que os investigadores deveriam ter insistido na obtenção de resposta. Nenhum dos pais mencionou que os contactos ou convites para participar tenham sido alguma vez demasiado insistentes ou indelicados (DK;IT;PT).

As pessoas que me telefonaram eram sempre de uma amabilidade e gentileza extraordinárias e isso é muito importante. Não demasiado chatas nem com telefonemas constantes e acho que isso também é importante (P5-PT, mãe).

Todos os pais que participaram na avaliação de desenvolvimento neurológico aos 5 anos (PT;IT) expressaram o seu apreço pelo método de avaliação escolhido, pela oportunidade de uma interação presencial com os investigadores, pela flexibilidade oferecida de horários e localização, e pelo retorno dos resultados. Os pais no contexto italiano acrescentaram que este foi o evento de acompanhamento que melhor correspondia às suas expectativas e que deveria ser replicado com mais frequência.

DISCUSSÃO

Este estudo explorou elementos situacionais envolvidos nos fenómenos de participação e atrito em três estudos de coortes de nascimento europeias de crianças nascidas VPT e/ou VLBW, abordando, concomitantemente, a interação dos pontos de vista e a experiência vivida dos indivíduos posicionados nos dois lados do processo de investigação. O processo de retenção começa no recrutamento e a relação entre equipas de investigação e participantes investigados deve ser entendida como um todo a ser sustentado dinamicamente ao longo de muitos anos. Quando os participantes são recrutados para coortes de nascimento, são os pais a darem o consentimento em nome dos seus filhos. Em geral, os desenhos de estudo implicam o comprometimento dos pais no preenchimento de questionários e na participação em entrevistas e avaliações dos filhos, periodicamente, a intervalos de tempo determinados e no decurso de um longo período de tempo. Implicam um compromisso sustentado dos pais em participar no estudo com os seus filhos. Embora consideremos que um envolvimento maior das crianças constitua tanto uma dimensão dos seus direitos como um potencial benefício para a investigação [22], foi a perspetiva dos seus pais que foi determinante para compreender a sua participação durante este ciclo de vida das coortes.

Os nossos resultados foram dominados pelo ponto de vista do género feminino e isso é em si mesmo um resultado e não um problema de enviesamento da nossa amostra intencional. Como reportado pelas equipas de gestão das coortes, reflete o peso do envolvimento do género feminino nestes estudos de coorte de crianças. Esta sobrerrepresentação sugere que a sua perspetiva e experiências vividas sobre a participação são um fator influenciador a ser tomado como crucial para as decisões estratégicas de gestão destas coortes [23]. Ademais, nos estudos de coortes a longo prazo, espera-se que a participação continue para além da infância. Como também revelado pelo nosso estudo, devem ser feitos esforços para implementar estratégias regulares de fortalecimento de elos de ligação ao longo do tempo, sem esquecer as dirigidas às crianças em particular, a fim de promover a sua retenção a longo prazo.

Altruísmo/solidariedade e gratidão/sentido do dever de retribuir foram expressas pelos pais como as principais forças motivacionais concorrentes para o seu

recrutamento e participação nestes estudos. O fraco elo de ligação e de identificação com a coorte a par de insuficiente retorno de informação sobre o estudo e as suas conclusões emergiram como principais dissuasores motivacionais em todos os contextos. Por outras palavras, os resultados revelam uma perceção de fracasso por parte do lado da investigação em satisfazer a expectativa de reciprocidade/retorno do lado dos participantes investigados. A concorrência destas mesmas forças motivacionais foi encontrada para outros participantes em variados tipos de estudos longitudinais e contextos sociais como uma das principais razões subjacentes à sua participação [9]. Alguns autores destes estudos procuraram interpretar o que parece ser a concorrência paradoxal destas motivações com a expectativa de reciprocidade recorrendo a conceitos como “altruísmo condicional”, “altruísmo fraco” ou “quicá menos verdadeiro”, “para ser socialmente mais aceitável” [23]. O consentimento de recrutamento nestas coortes não pressupôs a utilização de incentivos diretos de qualquer tipo. Por conseguinte, é razoável interpretar como “verdadeiro” que este tenha sido, deveras, um ato de dádiva, ou seja, uma transferência generosa de objetos socialmente valorizados sem qualquer garantia de reciprocidade. Ademais, o conceito de altruísmo na investigação em saúde tem sido por vezes contestado por ser erroneamente enquadrado pela crença de que o altruísmo humano é um motivador único ou primordial dissociado de qualquer tipo de interesse próprio, autopreservação ou expectativa. No entanto, não há qualquer contradição a ser identificada na associação do altruísmo com a expectativa de dar em troca. A reciprocidade na troca de oferendas é enquadrada como a expressão do vínculo social que contribui para a criação e manutenção equilibrada das relações na sociedade [25]. Os nossos resultados mostram que, embora não existindo uma garantia legal ou contratual de reciprocidade, uma relação de investigação percebida como desequilibrada entre aqueles que dão altruisticamente e aqueles que recebem resultou em efeitos adversos, nomeadamente: fraco sentimento de vínculo e aumento de negligência ou ausência de resposta.

Os nossos resultados revelaram também que os fenómenos de participação e atrito se encontram indissociavelmente ligados às experiências vividas de um nascimento VPT e do apoio prestado pelo sistema de saúde. A perceção de entrelaçamento dos acompanhamentos atuou tanto como facilitador para recrutamento quanto como dissuasor para participação em posteriores ondas de estudo. Tal como manifesto nas narrativas dos pais, a sua vulnerabilidade situacional aquando do recrutamento do recém-nascido influenciou positivamente na tomada de decisão, já que terá gerado uma potencialidade ambivalente. A sua experiência vivida nesse período favoreceu: uma condição de abertura, de recetividade para “ser afetado”, nem sequer dispostos a questionar ou reter informação detalhada sobre o estudo; e para “afetar por sua vez” ao encontrarem conforto na utilização da sua experiência angustiante para benefício de outros [26]. Como a sua capacidade para uma transferência generosa nessa altura era, contudo, limitada, a estratégia de abstrair dados dos

registos médicos sem exigir outro tipo de resposta dos pais revelou ser um sensível facilitador adicional à participação de base nestas coortes.

No entanto, à medida que os *follow-up* de investigação prosseguem, experiências vividas de paternidade continuamente angustiantes, quando adicionadas a situações de vulnerabilidade e de frustração com o sistema de saúde por inadequação de resposta às suas necessidades, convertem-se eventualmente em fator decisivo para não responder a mais uma solicitação. A expressão de recorrência de sentimentos de vulnerabilidade e de sobrecarga foi comum a todos os pais. Tal como foi, também, a queixa sobre a falta de prestação de cuidados de saúde e de apoio psicológico adequado às mães, especialmente apontada para os primeiros dois anos pós-parto, nos três países. De notar que as narrativas incluíram relatos descrevendo filhos saudáveis, relações estáveis, bom apoio familiar alargado e situações económicas confortáveis. Isto sugere que estes aspetos da prematuridade, de sofrimento, angústia e perturbação psicológica das mães e de *stress* parental de superação em geral, ou ainda não receberam atenção adequada por parte dos investigadores, ou os resultados encontrados não estão a ser traduzidos em políticas e práticas de cuidados de saúde adequadas na Europa [27].

Para além de uma adequada partilha de informação sobre o estudo para minimizar o equívoco do entrelaçamento clínico e de investigação, as coortes beneficiariam da promoção de oportunidades para um processo de investigação mais participativo, a ser iniciado desde o recrutamento. Tal como expresso pelos pais em todos os contextos, o recurso a metodologias de interação “mais pessoais”, que permitam o esclarecimento de dúvidas e a discussão sobre os temas da sua aflição, promove o fortalecimento dos sentimentos de “familiaridade” e “proximidade”, potenciando um envolvimento duradouro.

Em todos os cenários, a análise da implementação de procedimentos estratégicos particulares e das narrativas dos pais confirmaram a correção das perceções dos profissionais inquiridos relativamente às características desejáveis das estratégias de contacto e interação a ter com os participantes. Em acordo com as conclusões da recente revisão sistemática de Teague *et al.* [8], o uso de múltiplas estratégias flexíveis e adaptadas, particularmente a oferta de métodos alternativos de contacto e recolha de dados, favorece a participação, enquanto o recurso a incentivos financeiros como facilitador não foi de todo mencionado por nenhum dos pais nas três coortes europeias. Em desacordo, as nossas conclusões adicionam a regularidade no contacto/interação entre investigadores e participantes e a utilização de lembretes como principais facilitadores, alinhando com a revisão sistemática anterior de Booker, Harding e Benzeval (2011). O grande desafio parece estar na calibração adequada da relação custo-eficácia entre as estratégias de lembrete e os benefícios para otimização da resposta. Não obstante, alguns estudos sugerem que a resposta dos participantes aumentou ao enviar pelo menos um lembrete aos que ainda não tinham respondido;

outros sugerem que é maior a probabilidade de participantes previamente contactados por telefone não necessitarem de lembrete ou necessitarem de menos lembretes, tal como espelhado nos nossos resultados [3].

A abordagem fenomenológica permitiu encontrar procedimentos estratégicos que terão atuado como influenciadores na participação e no atrito e que não teriam sido identificados com as metodologias de investigação mais habituais. O método mais comum para recolha de dados nos estudos de coorte, o questionário enviado e a ser devolvido por correio, foi apontado por todos os pais como um fator de desmotivação para participar. Preferem métodos flexíveis e substituíveis por alternativas. Aconselharam ainda a assegurar que os questionários sejam curtos, claros e com mais oportunidades de respostas abertas, em acordo com resultados de outras investigações [21].

Os nossos resultados revelaram também importantes desafios situacionais para as coortes que afetam o potencial e amplitude de possibilidades de implementação de estratégias. Os três cenários partilham os impactos de influxo e mobilidade das populações na última década, relacionados com os contextos geopolítico e económico da União Europeia, enquanto a Itália se destaca pelo aumento bastante mais elevado da densidade populacional estrangeira. Embora todos os profissionais partilhem da longa preocupação com o maior risco de perdas para os *follow-up* entre os participantes pertencentes a minorias e grupos vulneráveis [28], este contexto de envolvimento restringe severamente a implementação de estratégias para lhe fazer face. Adicionalmente, o modelo de financiamento de investigação prevalecente na Europa restringe ainda mais as possibilidades de manter o contacto regular desejado entre as ondas de estudo, de organização de iniciativas para promover uma relação mais participativa, de adaptação de estratégias de redução de barreiras aos participantes vulneráveis ou de assegurar a constância no *staff* de investigação para promover a identificação dos participantes com o estudo. Foi possível descobrir, contudo, que a opção por estratégias polivalentes pode ajudar a calibrar a relação custo-eficácia dos procedimentos necessários para superar esses desafios. A estratégia da coorte portuguesa de envio de um postal de aniversário às crianças todos os anos é exemplar a este respeito.

Os estudos de coorte existem em condições contextuais materiais, ambientais, sociais e políticas e estas também mudam ao longo do tempo. O recurso a coortes de grande escala e a longo prazo, tal como proposto pelo projeto de investigação RECAP Preterm, tem o potencial de captar o valor e o efeito diferencial de intervenções políticas e programáticas, que operam tanto dentro como fora do sector da saúde, na qualidade e equidade de saúde das populações. São necessários sistemas de monitorização/acompanhamento de rotina que “permitam a geração e partilha de novas evidências sobre como os determinantes sociais influenciam a saúde das populações e a equidade em saúde e sobre a eficácia das medidas para reduzir as

desigualdades na saúde ao agir sobre os determinantes sociais” [29]. Os resultados do nosso estudo sugerem ainda ser necessário captar o valor e o efeito das intervenções políticas e programáticas no próprio fazer investigação.

LIMITAÇÕES

A investigação multi-situada com recolha de dados multimodais implica um esforço, recursos e tempo acrescidos ao mesmo tempo que aumenta a complexidade da análise. Este estudo limitou o seu exame aprofundado a três coortes. Outras investigações primárias similares a mais e diversos estudos de coorte VPT/VLBW existentes na Europa serão necessárias no futuro para expandir a nossa compreensão.

CONCLUSÃO

A abordagem multi-situada utilizada, centrando-se na interação da experiência vivida dos indivíduos posicionados nos dois lados do processo de investigação, foi da maior utilidade para compreender melhor a variabilidade e a relação custo-eficácia das diferentes abordagens implementadas. Foram identificados os elementos situacionais contextualmente específicos e transversais que têm agido como influenciadores na participação e no atrito destas coortes. As coortes europeias de crianças nascidas VPT/VLBW podem beneficiar da exploração destes resultados para desenvolver estratégias novas e/ou mais “em contexto” para melhorar a retenção dos seus participantes.

AGRADECIMENTOS

Este estudo não teria sido possível sem a generosa disposição de todos os participantes que partilharam o seu tempo, pensamentos e experiências – agradecemos calorosamente a todos. Agradecemos ainda às equipas de gestão e investigação das coortes em todos os locais pelo apoio prestado, bem como aos investigadores/colaboradores que assistiram na recolha e transcrição dos dados.

CONTRIBUIÇÕES DOS AUTORES

SCSM conceptualização e implementação do estudo, recolha de dados, análise e primeiro esboço do artigo; JD contribuiu para a implementação, recolha de dados,

análise e esboço do artigo; GA, GC, AB, MGC, MC, PP contribuíram para a implementação e recolha de dados. HB contribuiu para a conceptualização, implementação e esboço do artigo. Todos os autores contribuíram para a revisão do artigo e aprovaram a versão submetida.

FINANCIAMENTO

Projeto, estudo, conceção do estudo e recolha, análise e interpretação dos dados e manuscrito, foram financiados pelo programa de investigação e inovação H2020 da UE ao abrigo do acordo de subvenção n.º 733280. Este trabalho foi também financiado por fundos nacionais da Fundação para a Ciência e Tecnologia (FCT), Unidade de Investigação em Epidemiologia (EPIUnit) – Instituto de Saúde Pública da Universidade do Porto (ISPUP) no âmbito do projeto UIDB/04750/2020.

APROVAÇÃO ÉTICA E CONSENTIMENTO INFORMADO

O estudo foi aprovado por: Danish Ethical Committee System e Danish Data Protection Agency na Dinamarca; Ethics Committee of Bambino Gesù Paediatric Hospital em Itália; Comissão de Ética do Instituto de Saúde Pública da Universidade do Porto e Comissão Nacional de Protecção de Dados em Portugal. O consentimento para participar neste estudo foi obtido de todos os participantes através de consentimentos escritos explícitos de acordo com a política de proteção de dados do Regulamento Geral de Proteção de Dados [(UE) Regulamento 2016/67].

DISPONIBILIZAÇÃO DE DADOS E MATERIAIS

Os conjuntos de dados multi-situados gerados para este estudo não podem ser partilhados por restrições legais, éticas e de privacidade. De acordo com a aprovação ética nas três localizações e o consentimento informado assinado pelos participantes, que garante o seu anonimato e confidencialidade, os dados gerados para este estudo só podem ser acedidos e tratados no âmbito da equipa de investigação do grupo de trabalho RECAP Preterm-WP6 e no quadro da governação interna do projeto RECAP Preterm, H2020, financiado pela UE ao abrigo do acordo de subvenção N.º 733280.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- [1] Delgado Rodríguez M, Llorca Díaz J. Estudios longitudinales: Concepto y particularidades. *Rev Esp Salud Publica* 2004;78:141–8.
- [2] Toledano MB, Smith RB, Brook JP, Douglass M, Elliott P. How to establish and follow up a large prospective cohort study in the 21st century – Lessons from UK COSMOS. *PLoS One* 2015;10:1–16. <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0131521>.
- [3] Edwards N, Plotnikoff RC. Mobilizing an underused resource: Cohort studies for population health intervention research. *Int J Epidemiol* 2018;47:1730–3. <https://doi.org/10.1093/ije/dyy191>.
- [4] Booker CL, Harding S, Benzeval M. A systematic review of the effect of retention methods in population-based cohort studies. *BMC Public Health* 2011;11:249. <https://doi.org/10.1186/1471-2458-11-249>.
- [5] Funkhouser E, Wammack J, Roche C, Reis J, Sidney S, Schreiner P. Where are they now? Retention strategies over 25 years in the Coronary Artery Risk Development in Young Adults (CARDIA) Study. *Contemp Clin Trials Commun* 2018;9:64–70. <https://doi.org/10.1016/j.conctc.2017.12.003>.
- [6] Nohr EA, Liew Z. How to investigate and adjust for selection bias in cohort studies. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2018;97:407–16. <https://doi.org/10.1111/aogs.13319>.
- [7] George S, Duran N, Norris K. A systematic review of barriers and facilitators to minority research participation among African Americans, Latinos, Asian Americans, and Pacific Islanders. *Am J Public Health* 2014;104:16–31. <https://doi.org/10.2105/AJPH.2013.301706>.
- [8] Teague S, Youssef GJ, et al. Retention strategies in longitudinal cohort studies: A systematic review and meta-analysis. *BMC Med Res Methodol* 2018;18:1–22. <https://doi.org/10.1186/s12874-018-0586-7>.
- [9] Garg N, Round TP, Daker-White G, Bower P, Griffiths CJ. Attitudes to participating in a birth cohort study, views from a multiethnic population: a qualitative study using focus groups. *Heal Expect* 2017;20:146–58. <https://doi.org/10.1111/hex.12445>.
- [10] Abshire M, Dinglas VD, Cajita MIA, Eakin MN, Needham DM, Himmelfarb CD. Participant retention practices in longitudinal clinical research studies with high retention rates. *BMC Med Res Methodol* 2017;17:1–10. <https://doi.org/10.1186/s12874-017-0310-z>.
- [11] Holmberg C, Waters EA, Whitehouse K, Daly M, McCaskill-Stevens W. My Lived Experiences Are More Important Than Your Probabilities: The Role of Individualized Risk Estimates for Decision Making about Participation in the Study of Tamoxifen and Raloxifene (STAR). *Med Decis Mak* 2015;35:1010–22. <https://doi.org/10.1177/0272989X15594382>.
- [12] Lucas PJ, Allnock D, Jessiman T. How are European birth-cohort studies engaging and consulting with young cohort members? *BMC Med Res Methodol* 2013;13. <https://doi.org/10.1186/1471-2288-13-56>.
- [13] Barros H, Rodrigues C, et al. Effective perinatal intensive care in Europe (EPICE) – Descrição do projeto e primeiros resultados em Portugal. *Arq Med* 2014;28:183–90.
- [14] Marques SCS, Doetsch J, et al. Improving Understanding of participation and attrition phenomena in European Cohort Studies: Protocol for a Multi-situated Qualitative Study *JMIR Res Protoc*. 2020 jul 15;9(7). <https://doi.org/hhttps://doi.org/10.2196/14997>.
- [15] Mitchell CM, Sommer M. Participatory visual methodologies in global public health. *Glob Public Health* 2016;11:521–7. <https://doi.org/10.1080/17441692.2016.1170184>.
- [16] Marques SCS. Research on images and tourism in Kolkata, India: Doing fieldwork with participatory visual methodologies. Martins H, Mendes P, Ed. *campo Envol. e experiências em Antropol.*, Lisboa: Imprensa de Ciências Sociais; 2016, p. 241–61.
- [17] Marcus G. *Ethnography through thick and thin*. Princeton: Princeton University Press; 1998.
- [18] Haraway D. Situated Knowledges: The Science Question in Feminism and the Privilege of Partial Perspective. *Fem Stud* 1988;14:575. <https://doi.org/10.2307/3178066>.
- [19] Catalani CECV, Veneziale A, Campbell L, Herbst S, Butler B, Springgate B, et al. Videovoice: Community assessment in post-katrina new orleans. *Health Promot Pract* 2012;13:18–28. <https://doi.org/10.1177/1524839910369070>.
- [20] Wang C, Burrell MA. Empowerment through Photo Novella: Portraits of Participation. *Heal Educ Behav* 1994;21:171–86. <https://doi.org/10.1177/109019819402100204>.

- [21] Harcombe H, Derrett S, Herbison P, McBride D. “Do I really want to do this?” Longitudinal cohort study participants’ perspectives on postal survey design: A qualitative study. *BMC Med Res Methodol* 2011;11:8. <https://doi.org/10.1186/1471-2288-11-8>.
- [22] Senju A, Suga R, Tsuji M, Shibata E, Anan A, Yamamoto Y, et al. Postal contact with participating children and its impact on response rate: Japan Environment and Children’s Pilot Study. *Pediatr Int* 2016;58:1328–32. <https://doi.org/10.1111/ped.13019>.
- [23] Costigan CL, Cox MJ. Fathers’ participation in family research: Is there a self-selection bias? *J Fam Psychol* 2001;15:706–20. <https://doi.org/10.1037/0893-3200.15.4.706>.
- [24] Nobile H, Bergmann MM, Moldenhauer J, Borry P. Participants’ accounts on their decision to join a cohort study with an attached biobank: A qualitative content analysis study within two German studies. *J Empir Res Hum Res Ethics* 2016;11:237–49. <https://doi.org/10.1177/1556264616657463>.
- [25] Whitaker E. The gift: The form and reason for exchange in archaic societies. 2017. <https://doi.org/10.4324/9781912281008>.
- [26] Cole A. All of Us Are Vulnerable, But Some Are More Vulnerable than Others: The Political Ambiguity of Vulnerability Studies, an Ambivalent Critique. *Crit Horizons* 2016;17:260–77. <https://doi.org/10.1080/14409917.2016.1153896>.
- [27] Treyvaud K. Parent and family outcomes following very preterm or very low birth weight birth: A review. *Semin Fetal Neonatal Med* 2014;19:131–5. <https://doi.org/10.1016/j.siny.2013.10.008>.
- [28] Bonevski B, Randell M, et al. Reaching the hard-to-reach: A systematic review of strategies for improving health and medical research with socially disadvantaged groups. *BMC Med Res Methodol* 2014;14. <https://doi.org/10.1186/1471-2288-14-42>.
- [29] Marmot M, Friel S, Bell R, Houweling TA, Taylor S. Closing the gap in a generation: health equity through action on the social determinants of health. *Lancet* 2008;372:1661–9. [https://doi.org/10.1016/S0140-6736\(08\)61690-6](https://doi.org/10.1016/S0140-6736(08)61690-6).