

## CAPÍTULO 2

# FAMILIAS DE NIÑOS CON SÍNDROME DE DOWN

---

CLIFF C. CUNNINGHAM

*Universidad John Moores de Liverpool*

## INTRODUCCIÓN

Este artículo se centra en dos cuestiones principales:

1. ¿Cuál es el efecto de tener un hijo con síndrome de Down en la familia? ¿Cómo afecta esto a la forma en que funcionan como sistema? ¿Qué factores los ponen en riesgo y, por otro lado, qué factores proporcionan capacidad de recuperación ante estresores potenciales?
2. ¿Cuál es el efecto de la familia en el niño? En otras palabras, ¿qué factores influyen positiva o negativamente en el desarrollo y bienestar del niño?

Utilizaré principalmente los resultados de la investigación, matizados por mi propia experiencia, del estudio del «*Manchester Down Syndrome Cohort*» que comencé en 1973. He sido afortunado al

poder dar seguimiento a más de 100 familias a través de los años y en el último proyecto, completado por mis colegas Sloper y Turner (1994), las investigaron en los años de la adolescencia. Actualmente los estamos visitando de nuevo ahora que están entrando en la edad adulta. Comenzaré describiendo brevemente la cohorte, a las familias y los antecedentes de los diversos estudios que hemos realizado.

## ANTECEDENTES

Para poder dar una visión general de los principales resultados tendré que evitar las descripciones detalladas de la metodología, pero éstas pueden encontrarse en las referencias presentadas. Hemos utilizado una extensa variedad de medidas basadas tanto en métodos cualitativos como cuantitativos. Toda la investigación presentada ha estado sujeta a revisión crítica y publicada en *refereed journals*<sup>1</sup> o informes de proyectos.

Me gustaría enfatizar que vemos a la familia como un sistema transaccional en el cual muchas variables están constantemente interactuando y cambiando. Para hacer frente a este sistema dinámico hemos utilizado enfoques multivariados en un intento de identificar los factores con mayor influencia Asociados a la estabilidad y cambio a través del tiempo que influyen en el bienestar de la familia. Más allá de esto, también buscamos describir un estilo de cómo las familias se enfrentan a las circunstancias de la vida que incrementan o disminuyen las posibilidades de bienestar (Rutter, 1989). Para hacer esto es esencial que la muestra sea representativa de la población de familias con hijos con síndrome de Down.

---

<sup>1</sup> Se refiere a publicaciones donde existen revisores anónimos y jueces que determinan la calidad de los artículos.

## LA COHORTE

Entre 1973 y 1980 nos notificaron de 203 nacimientos. Veintidós familias no se unieron al proyecto porque los bebés murieron, fueron puestos fuera del área del estudio, los padres cambiaron de residencia o no contestaron a nuestra invitación. Ciento ochenta y un familias se unieron al proyecto, lo cual representa entre el 85 y el 90% de todos los nacimientos de niños con síndrome de Down en el área durante este periodo.

Las familias no diferían de familias similares en Gran Bretaña en este momento con la excepción de que había una pequeña tendencia hacia familias no obreras manuales<sup>2</sup> más educadas y con mejor situación económica. Esto ha sido encontrado en otras cohortes de familias con hijos con síndrome de Down (por ejemplo Carr, 1988). También, en promedio, la edad de los padres era un poco más avanzada tal como debía de esperarse dada la alta incidencia de nacimientos de madres mayores. Por lo tanto, la cohorte incluía algunas madres adolescentes y familias con un solo padre, familias de minorías étnicas y de segundos matrimonios. Algunas eran muy ricas y otras muy pobres. Algunas tenían grandes familias y otras familias nucleares pequeñas.

Esto era de esperarse ya que la incidencia del síndrome de Down es en gran medida la misma entre diferentes razas y culturas. El punto a enfatizar es que las familias con un niño con síndrome de Down no son diferentes a otras familias cuando el niño nace y exhiben las mismas grandes diferencias individuales. No hay, por lo tanto, una familia típica de un niño con síndrome de Down.

Los niños con síndrome de Down muestran también una gran variedad de diferencias individuales en términos de sus capacidades cognitivas, sociales y físicas, salud y personalidad. Por ejemplo,

---

<sup>2</sup> El término original es *non-manual families* y se refiere a las familias donde los padres no son obreros o no realizan trabajos manuales.

encontramos puntuaciones de CI en los años de preescolar que van desde menos de 20 hasta 100 con una media de alrededor de 50. Carr (1988) ha presentado rangos similares en los primeros años y cuando dio seguimiento a su cohorte a los 21 años de edad los CI variaban desde menos de 20 hasta 70 con una media de 40. Vale la pena destacar que este rango cubre unos 60 puntos CI que es la varianza encontrada en la población «normal». También encontramos una gran variedad de diferencias en temperamento en los primeros años de la niñez (Gibbs, 1984) similares a aquellas encontradas en distribuciones normales, pero con más niños que muestran una conducta apagada y pasiva y sobre 70% que son relativamente fáciles de manejar y de interactuar con ellos. Sin embargo, 25 a 30 % tenían temperamentos difíciles, tendientes a ser inquietos y excitables y eran difíciles de manejar.

Un problema con los estudios longitudinales es que los individuos se pierden a través del tiempo. En nuestra cohorte teníamos 134 familias cuando los niños tenían cinco años. El desgaste durante este periodo se debió a las muertes y a las familias que cambiaron de residencia. Ningún padre se retiró del estudio. En nuestro último estudio, en 1991, teníamos contacto con 118 familias y 106 tomaron parte en el estudio. La caída en número también fue en gran medida porque las familias cambiaron de residencia y por algunas muertes. Sin embargo, algunas rehusaron tomar parte en estudios posteriores por muchas razones. Por lo tanto, examinamos cuidadosamente qué tan representativa es la cohorte actual comparado con nuestro grupo original en cada seguimiento. A través de los años la proporción de familias de padre/madre soltero(a) se incrementó de un 4 a un 15% que se puede equiparar al 20% de la población. Teníamos también menos madres trabajando comparado con la población general, un resultado presentado en muchos estudios sobre niños con discapacidad. Hasta ahora no encontramos ninguna diferencia significativa en las variables principales para los estudios de seguimiento y sentimos una relativa confianza en que tenemos resultados representativos.

## LOS ESTUDIOS

A lo largo de los años se han realizado 5 estudios principales. El primero fue el estudio del desarrollo e intervenciones tempranas (1973-1982) Visitamos a las familias al menos cada seis semanas y les dimos programas estructurados para estimular a sus hijos y discutíamos cualquier problema. Recogimos datos demográficos, logros en el desarrollo del niño e información descriptiva de la salud del niño y de problemas experimentados por las familias. El segundo estudio (1982) obtuvo las percepciones de la madre acerca de la adaptación de la familia y su funcionamiento usando entrevistas y medimos el estrés maternal y los problemas de conducta de los niños. En 1984-1985, el tercer estudio examinó los efectos a largo plazo de la intervención temprana y los problemas de conducta en la cohorte contrastados con un grupo de comparación (estos estudios están presentados con detalle en Byrne *et al.*, 1988, Cunningham, 1987). El cuarto estudio en 1986-88 fue un estudio multivariado mucho más detallado de la adaptación de la familia que incluía información sobre los padres y fue repetido cinco años más tarde en 1991 cuando los niños estaban en la adolescencia. Este estudio también incluyó, por primera vez, información sobre los hermanos.

## ENFOQUE TEÓRICO

Las primeras investigaciones sobre familias con niños con discapacidad reflejaban un modelo patológico en el que se asumía automáticamente que las familias sufrían como consecuencia del niño, en realidad, esos estudios sólo buscaban resultados negativos (Byrne y Cunningham, 1985). Nosotros adoptamos un modelo transaccional de familia como sistema y lo combinamos con la teoría cognitiva de Folkman y Lazarus (1985) sobre estrés y afrontamiento. Esta aproximación sostiene que cualquier evento, como la discapacidad de un miembro de la familia, tendrá diferentes significa-

dos y efectos para cada individuo y que sólo el individuo puede evaluar si el efecto es angustiante. El efecto potencial de ese evento será modificado por la disponibilidad y la utilización de recursos y estrategias para enfrentarlo. Los recursos incluyen 1) **físicos**: salud, energía y vigor; 2) **utilitarios**: financieros, alojamiento, empleo; 3) **sociales**: redes sociales y sistemas de apoyo; 4) **psicológicos**: sistemas de creencias, habilidades para resolver problemas, personalidad. Es probable que la falta de recursos para afrontar una situación incrementa la tensión y el estrés en la situación familiar. Por lo tanto, dichos recursos se constituyen como una necesidad (Cunningham y Davis, 1985). Las estrategias de afrontamiento se refieren a cómo los padres tratan de manejar los problemas y de reducir la tensión y el estrés que causan. Pueden centrarse en problemas emocionales o prácticos. Las estrategias van desde la pasiva, por ejemplo el pensamiento esperanzador (esperar que el problema se vaya), estoica (no dando importancia al problema), a través de estrategias activas, por ejemplo la solución de problemas. Si la situación estresante es resuelta, es más probable que la persona se sienta fuerte y con control, lo cual puede reforzar sus recursos para afrontar los problemas en el futuro. Si no se resuelve pone una carga crónica en los recursos y puede conducir a efectos negativos en el bienestar fisiológico y psicológico. Por lo tanto, nuestra aproximación ha sido el estimar una gran variedad de factores que pueden tener efectos negativos o positivos en la familia y en el niño con síndrome de Down.

Las medidas de los niños incluyen: la habilidad mental utilizando pruebas de CI y de desarrollo; independencia que indica el grado de habilidades personales, domésticas y sociales para la vida independiente; vida social que abarca a las amistades y el uso del tiempo libre; problemas de aprendizaje y logros académicos. Estas son las medidas principales de resultados, pero también medimos diferentes variables descriptivas: género, edad, posición en la familia, problemas de salud, temperamento en la dimensión de excitabilidad-distracción, necesidades de cuidado y supervisión, intensidad de la intervención temprana y el tipo de escuela a la que asiste.

Las dos medidas principales de resultados utilizadas para evaluar a los padres fueron: *angustia*, utilizando una lista de 24 ítems de síntomas psicosomáticos, y *satisfacción con la vida*, basada en un índice de cómo las madres y los padres se sentían acerca de su vida en general, apoyo social, tiempo para ellos mismos, vida con la pareja y otros miembros de la familia, finanzas y paternidad. Los padres también completaban una serie de escalas validadas acerca de su personalidad, locus de control, relaciones maritales, apoyo social, contacto con los servicios y satisfacción percibida con los servicios. Para investigar el funcionamiento de la familia los padres completaron la Escala de Ambiente Familiar (*Family Environment Scale*) (Moos y Moos, 1981) y el índice de Relaciones Familiares (*Family Relations Index*) (Holahan y Moos, 1983). Las relaciones padre-hijo y unión fueron estimadas por entrevistas. Además, también completaron la escala Eventos de Vida (*Life-events*) y el Cuestionario de Afrontamiento (*Coping Questionnaire*) (Folkman y Lazarus, 1985) adaptado para las familias con niños con síndrome de Down (Knussen *et al.*, 1992). Las variables demográficas medidas fueron la clase social, desempleo, nivel educativo de los padres, vivienda, propiedad de coche, estado marital, edad de los padres, tamaño de la familia y problemas financieros.

## **CUÁLES SON LOS EFECTOS DE TENER A UN NIÑO CON SÍNDROME DE DOWN EN LA FAMILIA**

El peso de la evidencia de todos los estudios es que la mayoría de las familias (65-70%) funcionan como la mayor parte de las familias que no están en riesgo por el síndrome de Down del niño. No mostraron niveles de angustia fisiológica y psicológica por arriba de los umbrales y las puntuaciones resultaron menores cuando fueron comparados con estudios de familias con niños con otras discapacidades (Quine y Pahl, 1989, Sloper y Turner, 1993). En las medidas de funcionamiento de la familia se encontraron buenas relaciones, cohesión y expresividad. Mink *et al.* (1983) informó que

68% de sus familias con un niño con síndrome de Down fueron calificadas como cohesivas y armoniosas y tenían estado de ánimo significativamente más alto que las familias de niños con otras discapacidades intelectuales. Tres cuartas partes de nuestras familias fueron calificadas consistentemente durante años con expresiones positivas de cordialidad y afecto hacia su hijo con síndrome de Down. La tasa de divorcio en la cohorte siempre ha sido más baja que el promedio nacional y solamente un 14% sentían que tener un hijo con síndrome de Down había tenido un efecto negativo en su matrimonio. Por lo tanto, la mayoría de las familias informaron de buenas relaciones maritales. Esto también ha sido presentado recientemente en una muestra australiana (Cuskelly y Dodds, 1992). En 1984 y 1991 preguntamos a las madres acerca de los efectos de tener un hijo con síndrome de Down en ellas mismas y en la familia. Menos de una tercera parte pensaba que había tenido efectos negativos. La mayoría sentía que no había efectos negativos reales y usualmente respondían que habían cambiado para bien. Típicamente sentían que se preocupaban menos por trivialidades, menos materialistas y más centradas. Sus comentarios indican un cambio en creencias hacia una actitud más pro-social. También sentían que sus compañeros y otros hijos se habían beneficiado de la misma manera. Mink *et al.* (1983) especuló que el mejor estado de ánimo en las familias de niños con síndrome de Down se podía deber al efecto positivo del niño en el clima del hogar. Por lo tanto, el panorama en la niñez es que el niño con síndrome de Down no es una carga ni un mero receptor de cuidado para la mayoría de las familias. En realidad, parecen hacer una contribución positiva.

En los años de la adolescencia se encontró una disminución en la percepción de satisfacción con la vida de las madres. Esto fue asociado con una disminución en la satisfacción real y percibida del apoyo social. También había una tendencia de más madres a percibir efectos negativos de un niño con síndrome de Down en la familia. Parecería que sentían que un adolescente con síndrome de Down ponía mayores restricciones en la vida familiar comparadas con las de un adolescente sin discapacidad. En el ciclo de vida de

una familia «normal» la mayoría de los padres experimentan mayor independencia a medida que los niños llegan a la adolescencia y se vuelven más independientes. Pero esto no sucede con la mayoría de niños con síndrome de Down. Su desarrollo más lento y sus problemas de aprendizaje los fuerza a salirse del ciclo de vida normal. Dependiendo del nivel de capacidad, habilidad e intereses, comienzan a tener menos contactos sociales y amigos que no tienen discapacidad. En los años de la adolescencia muchos están relativamente aislados y se vuelven cada vez más dependientes de la familia para la interacción social. Como un padre lo describió «Me he convertido en el organizador del entretenimiento de mi hijo». Mientras mayor sea la necesidad de supervisión del niño mayores restricciones tiene la familia. Por ejemplo, encontramos que el nivel de problemas de conducta en los niños estaba significativamente relacionado con contactos sociales y amistades reducidos y mayores grados de efectos negativos en la familia.

## **FACTORES DE RIESGO POTENCIAL**

Entre una cuarta y una tercera parte de las familias estaban experimentando dificultades. Esto se reflejaba en más altos niveles de angustia y menor satisfacción con la vida. El estudio longitudinal mostró que el predictor más fuerte de cualquier medida en los años de adolescencia era la puntuación medida cinco años antes. Por ejemplo, la medida de estrés para madres fue particularmente estable durante nueve años desde la infancia temprana hasta la adolescencia.

Esto es importante ya que muestra que el patrón de familia e hijo funcionando está relativamente bien establecido en los años de la niñez. La implicación es que cualquier intervención para cambiar el patrón debe enfocarse en los primeros años.

Para los padres y las madres el factor más asociado con estrés negativo eran los problemas de comportamiento en el niño. Para la

mayoría de las familias el manejo del niño se volvía más fácil cuando crecían y esto estaba asociado con aumentos en autosuficiencia y menores problemas de conducta. A pesar de esto, el nivel de problemas de comportamiento encontrados en los primeros años de la niñez predecía fuertemente los niveles posteriores y las puntuaciones medidas se volvieron cada vez más estables de la mitad de la niñez hasta la adolescencia. Los niños con más probabilidades de tener problemas significativos de conducta tenían menores capacidades mentales y sufrían infecciones frecuentes y problemas de salud en la niñez. Los estudios han mostrado que los problemas de comportamiento son más probables en niños con hospitalizaciones prolongadas, enfermedades crónicas y lesiones. La sugerencia es que tales eventos aumentan la tensión en la familia y pueden alterar también los métodos de manejo y las expectativas del funcionamiento del niño. Esto puede conducir a sobreprotección por los padres y a un incremento en la dependencia del niño. Si esto ocurre en familias con problemas de relaciones el efecto aumenta. Nosotros encontramos que los problemas de comportamiento en el hermano estaban significativamente relacionados con patrones de malas relaciones familiares, pero no con alguna de las características del niño con síndrome de Down.

Los padres (varones) de niños con un CI bajo, con o sin problemas de conducta, y más aún si el hijo es un varón, presentaron consistentemente menor satisfacción con la vida a través de los años. Esto refuerza la idea, comúnmente presentada en la literatura y por las madres, de que los padres tienen más probabilidades de tener problemas de adaptación. El estudio longitudinal reciente sobre los primeros años de vida por Shonkoff et al. (1992) encontró que los padres continuamente presentaban mayores niveles de estrés que las madres en su apego al niño y que estos niveles eran mayores en los padres de niños con síndrome de Down comparados con otras discapacidades. Por lo tanto, muchos padres pueden encontrarse menos satisfechos en su papel de paternidad porque el niño tiene síndrome de Down. Esto puede reflejar sus problemas en aceptar el tener un niño así.

Es posible, sin embargo, que dichos problemas no sean únicamente debidos al orgullo y al ego masculinos. Los primeros esfuerzos de intervención se enfocan frecuentemente en las madres porque los padres trabajan durante las horas de contacto. Por lo tanto, los padres reciben menos apoyo. De aquí que debamos esforzarnos por satisfacer las necesidades individuales de los padres. En mi experiencia esto no es fácil ya que muchos padres son reacios a atender a reuniones o buscar orientación. Sin embargo, en las semanas posteriores al nacimiento muchos padres están en un estado de incertidumbre y están buscando activamente una guía. Encuentro este momento oportuno para establecer relaciones que, si son percibidas por las madres y los padres como provechosas, pueden durar a través de los años. De esta forma uno tiene la oportunidad de vencer la resistencia masculina y posiblemente ayudar en los problemas de adaptación. Pero esto debe ser una aproximación individual bien planteada.

Por lo tanto, el bajo funcionamiento y problemas de conducta que ocurren en menos de una tercera parte de los niños con síndrome de Down es un factor de riesgo para el bienestar de la familia. Sin embargo, aun cuando el niño está funcionando a este nivel no es inevitable que la familia experimente los mismos niveles de estrés o baja satisfacción. Los efectos de estas características en el bienestar son modificados por los recursos de la familia. Nuestros resultados muestran tres importantes grupos: variables socioeconómicas, de personalidad y de relaciones familiares.

El bienestar de la familia estaba asociado a la falta de recursos utilitarios más que a la posición social. Por ejemplo, una vivienda inadecuada predecía niveles de problemas de comportamiento y, a través de esto, estrés de los padres. Los problemas financieros y la falta de un coche estaba asociada al estrés de la madre y peores relaciones familiares. Si ambos padres trabajaban las madres presentaban menos angustia y más satisfacción. Aquellas madres que trabajaban tenían menor puntuación de estrés que aquellas desempleadas y esto era independiente de las puntuaciones anteriores

sobre estrés. Por lo tanto, parece que en la última parte de la niñez y durante la adolescencia el trabajo fuera de casa tenía un efecto protector para el bienestar de las madres. Esto puede deberse a que tienen mayores contactos sociales y acceso a apoyo, un respiro de las demandas del hogar y el niño, intereses alternativos y la oportunidad de evaluar su situación con personas fuera de la familia.

Desgraciadamente, comparado con cifras nacionales, las madres de niños con discapacidad tienen menos probabilidad de tener un empleo. Presumiblemente esto se debe a las necesidades de cuidados de su hijo. Sin embargo, nosotros encontramos en los primeros estudios que en nuestra cohorte tenían más probabilidades de tener empleo que un grupo comparativo. Sentimos que esto era resultado del apoyo y el ánimo que dimos para que buscaran empleo en lugar de sentir que solamente tenían que estar con su hijo por su discapacidad. Aun así, 40% de las madres en estudios posteriores comentó que la discapacidad de su hijo les restringió sus oportunidades de trabajo. Esto estaba relacionado frecuentemente a las necesidades después del colegio y los cuidados durante vacaciones que en algunos casos tenían que ser especializados. Dado el efecto potencial del empleo de la madre en las finanzas familiares, vivienda y bienestar en general y, a través de esto, en el desarrollo del niño y su calidad de vida, la provisión de servicios que ayuden a su empleo parecería una tarea que vale la pena.

La personalidad de los padres fue medida en la dimensión de neurosis. El número con altos niveles no era mayor que el esperado para la población en general. Un análisis detallado mostró que alta neurosis en los padres indicaba una vulnerabilidad personal a estresores y altos niveles de estrés. Los niveles altos de neurosis también fueron asociados con mayores problemas de conducta del hijo. Sin embargo, cuando el padre tenía los recursos de apoyo social y utilizaba estrategias prácticas de solución de problemas para tratarlos, los efectos potenciales de neurosis en los niveles de estrés y funcionamiento del niño se redujeron. Esto sugiere el

potencial de las intervenciones para estas familias para desarrollar su apoyo social y los mecanismos para afrontar las situaciones.

No es sorprendente que las relaciones familiares surjan como un recurso importante que afecta a todos los miembros. Se encontraron asociaciones directas y fuertes entre las puntuaciones de satisfacción con la vida y las relaciones maritales y entre padre-hijo positivas. Como cualquier niño, aquellos con síndrome de Down en familias cohesivas y armoniosas tenían también menos posibilidades de tener problemas de conducta y más posibilidades de tener niveles altos de funcionamiento. Las madres que manifiestan malas relaciones con el niño y la familia tienen más posibilidades de tener puntuaciones altas en estrés. Malas relaciones con el niño eran probables cuando el niño con síndrome de Down tiene un temperamento difícil y alta excitabilidad. Esos niños también tendían a estar en el rango bajo de CI y, a lo largo del tiempo, a desarrollar más problemas de conducta. Las madres tendían a expresar problemas familiares si tenían problemas financieros. Ninguna otra variable era significativa. *Por lo tanto, cualquier valoración que indique temperamento difícil y baja capacidad del niño debe conducir a intervenciones dirigidas a establecer relaciones padre-hijo más positivas.* Cuando los problemas financieros son aparentes, el apoyo financiero específico y el consejo en la administración del dinero pueden eliminar la posibilidad del deterioro de las relaciones. *Para estas familias la ayuda dirigida a estos temas parecería ser más efectiva que las intervenciones centradas en el niño ayudando a promover el desarrollo más rápido.* Verdaderamente son estas familias quienes tienen más probabilidades de ser incapaces de satisfacer las demandas de los programas de intervención temprana (Cunningham, 1985).

El tercer aspecto que surgió fue el uso de estrategias de afrontamiento. El uso del estoicismo por los padres al evaluar los problemas del niño estaba asociada significativamente con las puntuaciones más altas de satisfacción con la vida de las madres. Parecía que los padres que no daban importancia a la situación y se rehusaban a tomarla demasiado en serio daban algún apoyo a las madres que tendían a tener una reacción más emocional. Claramente hay un

balance sensible en las interrelaciones de los padres y uno puede imaginar el conflicto resultante si el padre ignora o no da importancia persistentemente a los problemas que afectan a la madre.

La estrategia de afrontamiento que surgió con más fuerza fue el pensamiento esperanzador. Cuando se utilizó para afrontar los problemas del niño tenía un efecto significativamente negativo en el bienestar de los padres y madres. No es una estrategia efectiva porque es poco probable que resuelva el problema, que se mantiene como un estresor. En una proporción de familias el pensamiento esperanzador fue predominante en el periodo de cinco años de la niñez a la adolescencia. Sin embargo, había indicios de que se volvía menos influyente con el incremento en la aceptación pasiva de los problemas. Es como si la «esperanza» de que las cosas mejoren conduce a la «aceptación» y la familia adopta, cada vez más, la estrategia pasiva de afrontamiento. Esto se observa frecuentemente con familias de adultos jóvenes con síndrome de Down, aun en familias cohesivas que han trabajado duro y de forma positiva por su hijo. Caen en rutinas más fáciles y menos estresantes y el joven es incorporado al estilo de vida de los padres. En tales familias el niño y el joven adulto es más probable que adopte también el estilo pasivo personal de afrontar los problemas por ejemplo la indefensión aprendida.

Estos factores estaban asociados también con el locus de control externo de los padres, por ejemplo, sentir que cada uno tenía poco control sobre su propia vida. Se encontró también una relación entre la neurosis y el pensamiento esperanzador. Los padres con puntuaciones más altas de neurosis eran más propensos a adoptar la estrategia del pensamiento esperanzador, que no teniendo efecto, conduce a la angustia. Una revisión reciente (Knusses y Sloper, 1992) de estudios usando el modelo de recursos y afrontamiento esbozado anteriormente, concluyó que las familias de niños con problemas de aprendizaje con más riesgo tenían niños con problemas de comportamiento, pocos recursos financieros y materiales (por ejemplo coches, lavadoras etc.); apoyo social y sistemas de cre-

encias inadecuados (por ejemplo, neurosis y baja autoestima), tendían más a utilizar formas pasivas de afrontamiento que formas que los resolvieran, en particular el pensamiento esperanzador.

En contraste, encontramos que las familias que utilizaban estrategias para resolver los problemas parecían tener mejores puntuaciones en variables asociadas con el bienestar. Además, dichas estrategias estaban asociadas con mejor funcionamiento del niño con síndrome de Down.

*Por lo tanto, parece una buena idea que las intervenciones debieran centrarse en ayudar a las familias de riesgo por mecanismos de afrontamiento que tienen más probabilidades de mostrar pocos recursos psicológicos, locus de control externo y posible neurosis.* Zeitlin et al. (1986, 1987) ha descrito una propuesta así y su aplicación en la intervención en pequeña escala. Recientemente Kirkham (1993) demostró que las madres de niños pequeños con discapacidad que recibían dicha intervención mejoraron sus estrategias y comunicaciones y presentaron menos depresión y mayor satisfacción con la vida que un grupo de control. Esto persistía durante un periodo de dos años después del programa de entrenamiento.

Aun cuando dichas propuestas tienen que ser utilizadas en los primeros años, este tipo de apoyo necesita ser ofrecido en los años posteriores especialmente para aquellas familias que vayan desarrollando gradualmente aproximaciones más pasivas y con menos expectativas.

## **LOS HERMANOS**

La investigación de los hermanos de niños con discapacidad presenta un panorama confuso con resultados contradictorios, debidos frecuentemente a problemas metodológicos.

Una aproximación ha tratado de investigar si los hermanos tienen más riesgo de problemas emocionales y de comportamiento. Estos han presentado más agresión en los hermanos (Lobato,

1987); más problemas de comportamiento de hermanos menores (Breslau *et al.*, 1981), hermanos (Gath y Gumley, 1987) y hermanas mayores (Gath, 1973; Breslau *et al.*, 1981; Cuskelly y Dodds, 1992; Cuskelly y Gunn, 1993) y sin efectos en hermanas (Gath y Gumley, 1987) y sin efectos negativos en hermanos (Carr y Hewett, 1982).

Una segunda aproximación ha intentado investigar los roles y responsabilidades de los hermanos posiblemente asociados con las demandas de los padres y mayores expectativas debidas a algún mecanismo compensatorio. De nuevo los estudios son equívocos. McHale y Gamble (1989) encontraron que los hermanos son más cuidadosos en comparación con otros niños, pero Cuskelly y Gunn (1993) no encuentran diferencias. No se encontró evidencia acerca de que los padres tengan mayores expectativas del hijo sin discapacidad.

En el estudio de 1991 había 63 hermanos viviendo en casa y más de diez años en nuestra cohorte. Fueron entrevistados acerca de sus puntos de vista sobre tener un hermano o una hermana con síndrome de Down, sus roles y responsabilidades y sus relaciones con la familia. Completaban cuestionarios de autoinforme en valía personal, ansiedad y el apoyo que percibían y atención de sus padres. Las madres completaron una escala de problemas de comportamiento de los hermanos. El análisis examinó estas medidas en combinación con las medidas de funcionamiento familiar y las características del hijo con síndrome de Down.

El resultado principal fue de adaptación positiva. Alrededor del 80% de los hermanos afirmaron que tenían una relación positiva con sus padres y con su hermano con síndrome de Down y un efecto positivo o neutro de tener un hermano o hermana con síndrome de Down. También tenían percepciones positivas de su autoestima. El 95% estaban involucrados activamente en roles de ayuda al hermano. No había indicios de ningún efecto negativo y, en realidad, el papel de ayuda estaba más fuertemente asociado con relaciones positivas con su hermano con síndrome de Down. El 60% sentía que no tenían mayores responsabilidades en la casa que sus iguales

mientras que 21% sentían que hacían más y 19% que hacían la misma cantidad.

De igual forma que en nuestros resultados anteriores, la mayoría de las madres sentían que tener un hermano o una hermana con síndrome de Down había tenido un efecto positivo en sus otros hijos. Esto era observado en logros y un comportamiento más prosocial. De nuevo, muchas madres sentían que las necesidades de cuidado del niño con síndrome de Down habían reducido las oportunidades de la familia de tiempo libre y de tiempo de los hermanos para ellos mismos.

Un panorama complejo surgió para un 20% que mostraba señales de menor adaptación. No se encontró ningún efecto por edad ni riesgo para hermanas mayores. El 18% de los hermanos fueron clasificados por encima del umbral en problemas de comportamiento, pero esto no estaba correlacionado significativamente con ninguna característica del niño con síndrome de Down. Como lo encontrado en nuestros estudios anteriores, el factor principal asociado con problemas de comportamiento era las relaciones familiares. Dentro de esto todas las variables asociadas con la adaptación de las madres, pero no con la adaptación de los padres, eran significativas. Esto resalta el papel que juegan las madres en el fomento de las relaciones familiares. Había un indicio de menores niveles de problemas de comportamiento en hermanos donde los padres (varones) utilizaban el apoyo social como mecanismo de afrontamiento para tratar los problemas asociados con su hijo con síndrome de Down. Por lo tanto, parece que los problemas de comportamiento del niño con síndrome de Down no es el factor principal que afecta los problemas de los hermanos. Por supuesto, puede ser que el efecto de los problemas de comportamiento del niño con síndrome de Down en las relaciones de familia y, particularmente, en la adaptación de las madres y sus estrategias de afrontamiento en consecuencia, influyan en las relaciones familiares y, por lo tanto, en el comportamiento del hermano. Pero los hermanos no corren riesgo si hay suficientes recursos para tratar dicho comportamien-

to, por ejemplo, el uso de redes sociales y apoyo por ambos padres. Ellos tienen el ejemplo con respecto a su hermano con síndrome de Down de sus padres.

La minoría de los hermanos con baja puntuación de autovaloración tenía hermanos o hermanas con síndrome de Down que tenían menores puntuaciones de autosuficiencia y por lo tanto demandaban mayores recursos de las familias y ponían mayores restricciones en actividades. Estos hermanos tenían también mayores probabilidades de tener puntuaciones más altas de rasgos de ansiedad y menor apoyo percibido y con respecto a sus padres. Esto puede reflejar problemas en las expectativas de los padres y las demandas sobre el hermano. Algunos sentían que su hermano o hermana con síndrome de Down era una carga en sus vidas y estos hermanos tenían más problemas de comportamiento. Muchos eran propensos a haberse percibido diferentes de sus pares en la cantidad de ayuda que proporcionaban en las actividades de cuidados, ya fuera más o menos. La mayoría de los adolescentes usan procesos de comparación social en el desarrollo de su autoconcepto y autoestima. Conformidad con el grupo es una parte importante de esto. Por lo tanto, estos hermanos pueden percibir que sus familias eran diferentes y, por asociación, ellos eran diferentes.

Parecería que, por lo tanto, hay un pequeño grupo de hermanos en riesgo, especialmente si el niño con síndrome de Down tiene pocas habilidades autosuficientes y que, por lo tanto, requiere mayores cuidados y supervisión, si son de una disposición angustiosa, sienten que reciben poco apoyo y poco ánimo de los padres, si sienten que el hermano con síndrome de Down es una carga y si sienten también que su familia es diferente. Dentro de este complejo hay diversos mecanismos explicativos. El riesgo de estos hermanos es reducido cuando las familias tienen los recursos para balancear las necesidades de todos los miembros y tienen una visión positiva de cada uno. Para aquellos de familias que están de alguna manera aisladas, posiblemente debido a las demandas del hijo menos independiente con síndrome de Down, hay riesgo de

que se perciban a sí mismos como diferentes y que desarrollen menor autoestima. Las madres son fuertemente influenciadas, pero hay indicios de que los padres pueden jugar un papel significativo para contrarrestar las demandas de las madres por parte del niño con síndrome de Down y esto es posible cuando los padres utilizan su red social de apoyo. Claramente estos temas necesitan una investigación más profunda antes de que podamos desarrollar intervenciones.

## **FACTORES ASOCIADOS CON EL DESARROLLO DEL NIÑO CON SÍNDROME DE DOWN**

Describiré los factores asociados con los resultados medidos de edad del desarrollo y habilidad mental, logros (académicos y auto-suficiencia), problemas de comportamiento y vida social.

### **Habilidad mental y el desarrollo temprano:**

En los primeros tres años de vida, los niños con problemas de salud severos (principalmente del corazón), tuvieron un progreso físico más lento, pero no se encontró ningún efecto en la habilidad mental. La intervención temprana y entrenamiento intenso estructurado durante los primeros dos años de vida tuvieron un pequeño impacto inmediato en los comportamientos objetivo, pero no tuvieron efectos generalizados o a largo plazo y el predictor principal de puntuaciones posteriores fueron las puntuaciones anteriores del mismo test, aunque esto era modesto alrededor del primer año. Estos hallazgos son similares a aquellos presentados en otros estudios (por ejemplo Gibson y Field, 1988; Shonkoff *et al.*, 1992).

Desde alrededor de los dos años, edades mentales de alrededor de 18 a 24 meses, aparecieron asociaciones significativas entre las

puntuaciones de edad mental y clase social y el nivel educativo de los padres, mostrando en este último la influencia más fuerte. Hacia los 4 o 5 años las niñas tenían puntuaciones medias más altas que los niños. Este es el mismo patrón que el que se encuentra en niños normales.

Desde alrededor del segundo al tercer año de vida las puntuaciones de habilidad mental de los niños se volvieron muy estables con correlaciones cayendo de 0,7 al rango de 0,9. Carr (1988) informa de niveles similares con una correlación de 0,9 entre los CI medidos en los primeros años y a los 21 años y una buena predicción para alrededor del 80% de la muestra. Ella confirmó un aumento en las puntuaciones de habilidad en los últimos años de la adolescencia y los primeros de la edad adulta excepto para los jóvenes con síndrome de Down que estaban severamente discapacitados.

### **Logros:**

Las puntuaciones de los logros académicos (lectura, escritura y habilidad numérica) y autosuficiencia se han incrementado establemente a lo largo de los años para el 90% de los niños. El predictor más poderoso del progreso ha sido la puntuación de habilidad mental del niño con alrededor del 60% de la varianza para logros académicos y de 40 a 50% para las puntuaciones de autosuficiencia.

Se encontraron constante e independientemente mayores progresos en logros académicos en aquellos niños que asistían a escuelas regulares y que tenían altas puntuaciones en atención y bajas puntuaciones en distracción. En 1986 también encontramos que las niñas tenían mayores logros académicos que los niños, pero esto había reducido su significación para 1991. Sin embargo, se encontró que las niñas se distraen menos fácilmente que los niños. En 1986 encontramos que los niños, especialmente los varones, de

padres con puntuaciones bajas en locus de control tenían menos progresos. Por lo tanto, los padres que sienten que no pueden ejercer mucha influencia en los eventos pueden estar menos inclinados a involucrarse activamente en la educación del niño o tener diferentes aspiraciones. En 1991 fueron encontrados mayores progresos en los niños cuyas madres usaban más estrategias prácticas para tratar los problemas relacionados con los hijos.

Se halló una influencia indirecta para la ocupación y el nivel educativo. Los niños de padres no-manuales y con mayor nivel educativo tenían mayores probabilidades de estar en escuelas regulares desde los primeros años. Encontramos que alrededor de la mitad de los niños de la cohorte fueron a un preescolar regular. Esto era significativamente mayor que un grupo de control que no tuvo el apoyo de la intervención temprana en ese momento. Sin embargo, el efecto era debido al menor nivel educativo y ocupación manual de las familias de nuestra cohorte que buscaban una escuela regular para sus hijos. Por lo tanto, nuestra intervención pareció ayudar a esas familias a ser más conscientes y más asertivas. Para los años de la adolescencia solamente el 10% de la cohorte permanecía en escuelas regulares y el 90% de esos niños eran de familias no-manuales.

También encontramos que los factores principales relacionados con el asistir a una escuela regular era la habilidad mental y bajas puntuaciones de distracción. Aun así de los niños en escuelas especiales el 15% tenía niveles de habilidad similares y el 63% niveles similares de atención y, aunque no significativo estadísticamente, la mayoría de este grupo venía de familias manuales. Por lo tanto, uno puede especular que las actitudes de las familias en torno a la educación y las estrategias y habilidades para tratar con profesionales influyen directamente en la decisión sobre la educación y, por lo tanto, tienen un efecto sobre los logros académicos.

Las puntuaciones de autosuficiencia están más influidas por factores familiares que los logros académicos. En 1986 encontramos que una vez que controlamos la edad mental, mayores puntuacio-

nes de autosuficiencia estaban asociadas a niños cuyas madres utilizaban estrategias de afrontamiento prácticas y para resolver problemas y menores puntuaciones para aquellos que tendían a tener pensamiento más esperanzador. Los niños que tenían menores problemas de comportamiento y eran menos excitables también obtuvieron puntuaciones más altas. Sin embargo, el efecto del estilo de afrontamiento de las madres era aún significativo para los niños con temperamento y comportamiento difíciles.

Las influencias del medio ambiente parecen tener un mayor impacto en los niños más hábiles. Por ejemplo, los 15 niños con edades mentales menores a 32 meses en 1986 tuvieron la mitad del progreso en autosuficiencia que el resto de la muestra en 1991. Además la edad mental solo representaba el 21% de la varianza del progreso en autosuficiencia para el 85% de los niños más avanzados comparado con el 44% para la muestra completa.

*Por lo tanto para la mayoría de los niños, conforme van creciendo, la relación entre la habilidad cognitiva y el desarrollo de habilidades se va debilitando y la influencia de factores familiares se vuelve más fuerte. En otras palabras, aunque su habilidad cognitiva impone limitaciones en sus logros intelectuales, para el momento en que lleguen a la mitad o finales de la niñez (con edades mentales mayores a 3 o años) la mayoría tienen la habilidad de aprender una gran variedad de habilidades para la vida y lo harán cuando estén apoyados por su familia y les sean dadas las oportunidades educativas necesarias.*

## **PROBLEMAS DE COMPORTAMIENTO**

El nivel de problemas de manejo y comportamiento disminuyeron a través de los años. Sin embargo, la mayoría de los niños que mostraron problemas de comportamiento persistentes desde la niñez temprana-media todavía tenían problemas en la adolescencia y necesitaban mayores grados de supervisión. Hasta la niñez tardía los niños calificados como con problemas de comportamiento te-

nían mayores probabilidades de tener menores habilidades mentales, puntuaciones de excitabilidad más altas, una mayor incidencia de infecciones respiratorias y menores puntuaciones de autosuficiencia. Como se mencionó anteriormente, cuando estos factores eran controlados, este grupo también tenía menores puntuaciones en cohesión familiar, relaciones padre-hijo y vivienda inadecuada, lo que refleja problemas financieros, poco apoyo social para los padres, desempleo de los padres (varones), la utilización por las madres de estrategias pasivas y aquellas con puntuaciones altas de neurosis y tensión familiar por los eventos actuales de la vida. Es difícil determinar la causa y el efecto de estos factores, pero las estrategias de los padres, problemas financieros y la salud recurrente del niño tienen probabilidad de afectar el estilo de manejo y las interrelaciones en las familias. También son objetivos razonables para intervención. Para 1991 el principal predictor de los problemas de comportamiento eran las puntuaciones de 1986. *Esto sugiere que el tiempo ideal para las intervenciones preventivas con estas familias son los primeros años.*

## **VIDA SOCIAL**

La vida social fue medida en términos de los contactos de los niños con actividades organizadas, por ejemplo clubs, equipos y actividades informales, por ejemplo, contactos con amigos, otras personas o salidas con la familia. Aunque la puntuación total más alta era generalmente para aquellos niños más hábiles y con menores problemas de comportamiento, diferentes características familiares tenían una influencia mucho mayor en el tipo de vida social que tenían. Por lo tanto, los niños en familias con una orientación activa-recreativa con madres jóvenes y más hermanos tenían una vida social más amplia.

Estos dos aspectos, contactos organizativos e informales, no estaban necesariamente relacionados. Algunos niños no tenían

amigos, pero asistían a clubs y otros tenían muchos contactos informales, pero no tenían actividades organizadas. También predichas por diferentes factores. Los niños con niveles más altos de contactos informales tenían madres más jóvenes que usaban estrategias prácticas de afrontamiento y no tenían problemas financieros. Los niños que asistían a actividades no organizadas eran de familias con malas relaciones familiares y padres con problemas de personalidad y estrés. En contraste, si el niño asistía a una escuela regular tenía mayores probabilidades de involucrarse en un mayor número de actividades sociales.

*Por lo tanto, los resultados identifican muchos factores del medio relacionados con el funcionamiento de la familia que tienen impacto directo en el desarrollo, comportamiento y vida social del niño con síndrome de Down.*

## CONCLUSIONES

La impresión general de las familias con niños con síndrome de Down es de normalidad. Los factores que influyen en su bienestar y en el del niño son, en gran medida, los mismos que influyen en cualquier niño o familia. La investigación ha hecho énfasis en el amplio rango de diferencias individuales entre y dentro de las familias y entre los mismos niños. En consecuencia se deberían evitar asunciones y afirmaciones generales basadas en la presencia de un hijo con síndrome de Down.

No se puede asumir que la familia o miembros individuales están «en riesgo» por problemas psicológicos sólo porque uno de los miembros tiene síndrome de Down. Encontramos que la mayoría de las familias (60 a 70%) en la cohorte eran armoniosas con altos niveles de cohesión familiar y con satisfacción con la vida y con niveles relativamente normales de estrés. Se habían adaptado positivamente a su hijo con síndrome de Down y no presentaron

efectos psicológicos negativos persistentes en sus vidas o en sus otros hijos. En realidad tendían a sentir que el niño había contribuido positivamente a la familia.

No deseo minimizar los problemas que afrontan estas familias. Experimentan trauma? considerables después del nacimiento y, en su papel de padres o familiares de un niño con discapacidad, tienen que desarrollar nuevos conocimientos y nuevas habilidades y reconstruir sus ideas acerca de ellos mismos, sus valores y aspiraciones. Frecuentemente, se enfrentan a una sociedad con poca comprensión y muchos prejuicios. Tienen que aprender a tratar con una gran variedad de profesionales y agencias y a desarrollar habilidades de negociación asertivas para obtener los mejores recursos para sus hijos. También tienen que desarrollar estrategias prácticas de solución de problemas y mantener una actitud expectante positiva con su hijo a pesar de muchas contrariedades, desaliento y progreso lento. El hecho de que muchas familias 'afrontan bien los problemas es un testimonio de su compromiso con el niño, su adaptabilidad y fuerza más que una falta de problemas. Necesitan información precisa y apoyo de calidad desde los diferentes servicios para cubrir las necesidades de sus hijos y conocer los servicios disponibles. Ciertamente necesitan estas cosas en puntos críticos del ciclo de vida de su hijo como en los primeros meses, cuando tienen que seleccionar preescolares y escuelas, la transición de la niñez a la pubertad, de la adolescencia a la adultez, de la escuela a la universidad y la vida independiente.

Alrededor de una tercera parte de las familias experimentan dificultades reflejadas en mayor estrés y menor satisfacción con la vida. Esto estaba asociado con las características del niño de menor habilidad mental, problemas de comportamiento, temperamento excitable e infecciones recurrentes. También estaba asociado con un grupo de características familiares. Por ejemplo, menores niveles de recursos utilitarios asociados con el dinero, vivienda y empleo, menores niveles de apoyo social, problemas de salud de los padres y recursos psicológicos como personalidad y el uso de estra-

tegas sin efecto. Se encontró que todos estos factores influyen el desarrollo y comportamiento del niño. **También** mediaron los niveles de estrés y satisfacción con la vida de los padres. Algunos de estos factores pueden ser influenciados por la intervención. Un resultado **importante** fue que el mejor predictor de cualquier medida, por ejemplo, estrés de los padres, habilidad mental, autosuficiencia, **problemas** de comportamiento en el niño, eran las **puntuaciones** en las mismas medidas en el estudio previo 5 y 9 años antes. Esto sugiere la necesidad de **intervención** en los primeros años.

La investigación indica claramente que dicha intervención debe enfocarse en la familia como unidad y no únicamente en el niño o meramente en la patología del niño. Programas generalizados de terapia y entrenamiento que intentan contraatacar el retraso del desarrollo o déficits asociados con discapacidad intelectual del niño no han sido tan efectivos. Esto no es sorprendente **dad**a la gran variedad de diferencias individuales en los niños con síndrome de Down y sus familias. Por lo tanto, programas que **son** automáticamente aplicados a todos los niños con síndrome de Down son simplistas y no son eficientes.

Mi propuesta es entablar una **relación** de sociedad con la familia en la cual explico mucho de la investigación mencionada y el modelo que utilizo para evaluar sus necesidades. **Comienzo** explorando las demandas probables de recursos de la familia del niño, relaciono esto con los recursos que **tienen** disponibles y sus estrategias de afrontamiento. Las tres fuentes de demandas son:

1. **Las demandas de cuidados.** Estas involucran el nivel personal de autosuficiencia en el niño (por ejemplo, alimentación, vestido, baño y servicio), salud y movilidad. El punto hasta el que la familia trata dichas demandas depende en gran medida de sus recursos utilitarios, apoyo social práctico y recursos de **salud/energía**. Por lo tanto, las necesidades se relacionarán con finanzas, vivienda, transporte, lavandería, ayuda en casa, apoyo en el cuidado del niño, dietas especiales, equipos para ahorrar trabajo, etc. En algunas familias

estas demandas estarán influenciadas por los sistemas de creencias, por ejemplo, la medida en la que favorecen la autosuficiencia en el niño y la habilidad en la solución de problemas para buscar ayuda y consejo.

2. **Demandas de supervisión.** Tales como el tiempo que el niño puede dejarse solo, si se puede confiar en el niño en casa, con amigos o cuando se está de excursión. Esto está relacionado con el comportamiento y la facilidad de manejo del niño. Están asociadas más frecuentemente con recursos psicológicos que son base de los valores de los padres acerca de comportamiento del niño y su habilidad para aplicar procedimientos de manejo apropiados y consistentes. Sin embargo, también abarcan apoyo social, vivienda y salud. Por lo tanto, las necesidades de las familias incluyen ayuda en el cuidado del niño, ayuda profesional con el desarrollo y habilidades de manejo del comportamiento. Frecuentemente, es esencial considerar las actitudes de los padres y sus creencias de que pueden ser efectivas. Por lo tanto, los programas que apoyan la confianza en sus habilidades de padres son importantes.
3. **Demandas afectivas.** Algunos padres experimentan pocos sentimientos de realización en su papel de padres. Encuentran difícil tener sentimientos positivos hacia el niño. Esto es debido algunas veces a la falta de conductas afectivas y respuestas del niño y a que el niño no llena las expectativas y esperanzas de los padres. Dichos sentimientos son muy comunes después de la revelación del diagnóstico. En este momento la familia necesita apoyo y ayuda para aprender como observar al niño y entender e interpretar su comportamiento y desarrollo. También pueden necesitar reflexionar acerca de sus sentimientos acerca de la discapacidad y el cambio de papel y expectativas de la paternidad. Esto puede cambiar y fluctuar conforme el niño crece y se puede observar a la persona que surge. Pueden cambiar como

resultado de otros factores familiares y circunstancias diferentes. La adaptación de los miembros de la familia (madres, padres, hermanos, abuelos u otros importantes) es individual. Por lo tanto, el apoyo debe centrarse en las necesidades individuales, pero dentro de un entendimiento detallado de la familia basado en una cuidadosa evaluación de los recursos y estrategias de afrontamiento adoptados por los miembros cuando se enfrentan a los problemas. Podemos predecir el potencial de las personas con síndrome de Down únicamente cuando ellos y sus familias tengan acceso a este tipo de apoyo en los momentos clave de su ciclo de vida.

## AGRADECIMIENTOS

Basado en una investigación presentada en la Conferencia Internacional «Personas con síndrome de Down en el Umbral del Siglo XXI», Roma 23-25 de octubre de 1996.

Agradezco a todos los que han trabajado en la cohorte desde 1973, particularmente a la Dra. Trica Sloper y Steve Turner que fueron responsable del trabajo más reciente.

## REFERENCIAS

- BRESLAU, N., WEITZMAN, M. & MESSMINCER, K. (1981). «Psychological functioning of siblings of disabled children», *Pediatrics*, 63, 616-627.
- BYRNE, E. A. & CUNNINGHAM, C. C. (1985). «The effects of mentally handicapped children on families: A conceptual review», *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 26, 847-864.

- BYRNE, E. A., CUNNINGHAM, C. C. & SLOPER, P. (1988). *Families and their children with Down's syndrome: One Feature in Common*, London, Routledge.
- CARR, J. (1988). «Six weeks to twenty-one years: A longitudinal study of children with Dow's syndrome and their families», *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 29, 407-431.
- CARR, J. & HEWETT, S. (1982). «Children with Down syndrome growing up», *Association of Child Psychology and Psychiatry News*, 4, 10-13.
- CUNNINGHAM, C. C. (1985). «Training and education approaches for parents of children with special needs», *British Journal of Medical Psychology*, 58, 285-305.
- CUNNINGHAM, C. C. (1987). «Early Intervention in Down's syndrome», in G. HOSKING and G. MURPHY (Eds), *Prevention of mental handicap: A World View*. London, Royal Society of Medicine Services.
- CUNNINGHAM, C. C. & DAVIS, H. (1985). *Working with Parents: frameworks for collaboration*, London, Open University Press.
- CUSKELLY, M. & DODDS, M. (1992). «Behavior problems in children with Down's syndrome and their siblings», *Journal of child Psychology and Psychiatry*, 33, 749-761.
- CUSKELLY, M. & GUNN, P. (1993). «Maternal reports of behavior of siblings with children with Down syndrome», *American Journal on Mental Retardation*, 97, 521-529.
- FOLKMAN, S. & LAZARUS, R. S. (1985). «If it changes it must be a progress: a study of emotion and coping during three stages of a college examination», *Journal of Personality and Social Psychology*, 48, 150-170.
- GATH, A. (1973). «The school age siblings of mongol children», *British Journal of Psychiatry*, 123, 161-167.
- GATH, A. & GUMLEY, D. (1987). «Retarded children and their siblings», *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 28, 715-730.
- GIBBS, M. V. (1984). *The applicability of temperament scales to a British sample of non-handicapped and Down's syndrome children*, Unpublished PhD thesis, University of Manchester.
- GIBSON, D. & FIELD, D. (1984). «Early stimulation programs for Down's syndrome: An effectiveness inventory», in W. WOLRAICH & D. ROUTH (eds.), *Advances in developmental and behavioural pediatrics* (Vol. 5, 331-372), Greenwich, CT, JAI Press.

- HOLAHAN, C. J. MOOS, R. H. (1986). «Personality, coping and family resources in stress resistance. A longitudinal study», *Journal of Personality and Social Psychology*, 51, 389-395.
- KIRKHAM, M. A. (1993). «Two-year follow-up of skills training with mothers of children with disabilities», *American Journal of Mental Retardation*, 5, 509-520.
- KNUSSEN, C.; SLOPER, P., CUNNINGHAM, C. C. TURNER, S. (1992). «The use of the Ways of Coping (Revised) questionnaire with parents of children with Down syndrome», *Psychological Medicine*, 22, 775-786.
- KNUSSEN, C. & SLOPER, P. (1992). «Stress in families of children with disability: A review of risk and resistance factors», *Journal of Mental Health*, 1, 241-256.
- LOBATO, D., BARBOUR, L., HALL, L. J. MILLER (1987). «Psychological characteristics of pre-school siblings of handicapped and non-handicapped children», *Journal of Abnormal Child Psychology*, 15, 329-388.
- McHALE, S. M. & GAMBLE, W. C. (1989). «Sibling relationships of children with disabled and non-disabled brothers and sisters», *Developmental Psychology*, 25, 421-429.
- MINK, I. T., NIHIRA, E., & MEYERS, C. E. (1983). «Taxonomy of family life styles: In Homes with TMR children», *American Journal of Mental Deficiency*, 87, 484-497.
- MOOS, R. H. & MOOS, B. (1981). *Family Environment Scale: Manual*, Palo Alto, CA, Consulting-Psychologist Press.
- QUINE, L. & PAHL, J. (1989). *Stress and Coping in Families Caring for a Child with Severe Mental Handicaps: A Longitudinal Study*, Final Report, University of Kent, Institute of Social and Applied Psychology and Centre for Health Service Studies.
- RUTTER, M. (1989). «Pathways from childhood to adult life», *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 30, 23-51.
- SHONKOFF, J. P., HAUSER-CRAM, P., KRAUSS, M. W. & UPSHUR, C. C. (1992). «Development of infants with disabilities and their families: Implications for theory and service delivery», *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 57 (6, Serial No. 230).
- SLOPER, P. & TURNER, S. (1993). «Risk and resilience factors in the adaptation of parents of children with severe physical disability», *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 34, 167-158.

- SLOPER, P. & TURNER, S. (1994).** *Families of Teenagers with Down's syndrome: Parent, Child and Sibling Adaptation*, Final Report to ESRC; Hester Adrian Research Centre, University of Manchester.
- ZETLIN, S., WILLIAMSON, G. G. & ROSENBLATT, W. P. (1987).** «The coping with stress model: A counseling approach for families with a handicapped child», *Journal of Counseling and Development*, 65, 443-447.