



FACULTAD DE CIENCIAS HUMANAS Y SOCIALES

LA VENTAJA DEL SÍNDROME DE DOWN EN LA CALIDAD DE VIDA INDIVIDUAL Y FAMILIAR

Autor: Sara Corral Álvarez
Tutor Profesional: Gloria García Fernández
Tutor Metodológico: David Paniagua Sánchez

Madrid
Mayo 2016

Sara
Corral
Álvarez

LA VENTAJA DEL SÍNDROME DE DOWN EN LA CALIDAD DE VIDA INDIVIDUAL Y FAMILIAR



Resumen

El objetivo principal del estudio fue examinar la ventaja del síndrome de Down a través de la calidad de vida familiar e individual -autoinformada y heteroinformada- y según el género. La muestra la formaron 168 personas, 84 personas con discapacidad intelectual y 84 progenitores, uno por cada participante con discapacidad. Los instrumentos utilizados fueron la Escala de Evaluación Integral de la Calidad de Vida de personas con Discapacidad Intelectual o del Desarrollo (Verdugo et al., 2013) y la Escala de Calidad de Vida Familiar (Verdugo, Rodríguez y Sainz, 2009). Los resultados obtenidos reflejan, por un lado, que las familias con un hijo varón perciben más apoyos y servicios que cuando es mujer. Por otro lado, se encuentra una ventaja únicamente en la calidad de vida individual heteroinformada en el grupo con síndrome de Down y en la calidad de vida individual autoinformada en el de etiología mixta. Igualmente, dos variables que se habían indicado como artefactos en estudios previos -ingresos y edad parental-, no se relacionaron con el modelo. De este modo, la ventaja se puede explicar más por el estereotipo positivo del fenotipo conductual de los progenitores que por el mismo, resaltando la importancia de la autoevaluación en este tipo de estudios.

Palabras clave: calidad de vida familiar, calidad de vida individual, ventaja del síndrome de Down, discapacidad intelectual.

Abstract

The main objective of the study was to examine the Down syndrome advantage through family and individual quality of life -self-reported and hetero-reported- as a function of gender. The sample consisted of 168 people, 84 of which had intellectual disabilities and the remaining 84 were parents of the participants with disabilities -one parent for each participant with disabilities-. The tools used were the comprehensive Quality of Life Assessment of People with Intellectual and Developmental Disabilities Scale (Verdugo et al., 2013.), and the Family Quality of Life Scale (Verdugo, Rodríguez & Sainz, 2009). Results show that male child's families receive more support and services than female child's families. On the other hand, an advantage is only found in the hetero-informed individual quality of life in the group of people with Down syndrome and in the self-reported individual quality of life in the mixed etiology group. Similarly, two variables that had been identified in previous studies as artifacts -income and parental age- did not relate to the model. Thus, the presence of the advantage can be more explained by the positive stereotype of their parents behavioral phenotype than the behavioral phenotype itself, highlighting the importance of self-evaluation in these studies.

Keywords: family quality of life, individual quality of life, Down syndrome advantage, intellectual disability.

Los distintos tipos de discapacidad intelectual -DI- y su impacto familiar han sido ampliamente investigados, y, a pesar de que hay más de 1000 síndromes de causa genética asociados a la discapacidad (Dykens, 2003), una gran parte de los estudios tratan sobre el síndrome de Down -SD-.

El síndrome de Down es la causa cromosómica más común en la discapacidad intelectual (Hodapp, 2007; Zigman, Schupf, Urv y Silverman, 2009). Por lo general, resulta de un error cromosómico no hereditario -trisomía en el par 21- y conduce de leves a moderados niveles de la discapacidad intelectual (Dykens, Hodapp y Finucane, 2000). A nivel mundial, tiene una incidencia de aproximadamente 1 de cada 800-1100 nacimientos, dependiendo del país (*World Health Organization*, 2012), y su esperanza de vida es cada vez mayor, estando en la actualidad cerca de los 60 años (*National Association for Down Syndrome*, 2010).

El estudio de la DI ha seguido a lo largo de los años líneas de investigación diferentes. Hasta la década de 1990, las investigaciones se habían basado en el estudio de los niveles de discapacidad o de dificultad de aprendizaje (Hodapp y Dykens, 1994). En los siguientes años, se comenzaron a estudiar grupos basados en la etiología de la discapacidad (O'Brien y Yule, 1995). A partir de entonces y durante los últimos 20 años, la investigación se ha dirigido más a los fenotipos conductuales (Fidler, Most, y Philofsky, 2009; Griffith, Hastings, Nash, y Hill, 2010), siendo a su vez el foco de interés del estudio de “la ventaja del síndrome de Down” (Hodapp, Burke y Urbano, 2012).

La ventaja del síndrome de Down (Hodap, 2007; Hodapp, Ly, Fidler y Ricci, 2001; Seltzer y Ryff, 1994) hace referencia a un fenómeno encontrado en diversos estudios por el cual las familias que tienen un miembro con SD presentan mejores resultados en diferentes variables medidas a través de los distintos familiares, como un menor nivel de estrés o un mejor afrontamiento, en comparación con familias con un miembro con otro tipo de discapacidad intelectual.

En esta línea de investigación, se ha planteado que los trastornos de origen genético tenían efectos tanto directos -comportamientos relacionados con la etiología- como indirectos -cómo estos comportamientos influyen en otros- del estereotipo positivo. Los estereotipos positivos sobre el fenotipo conductual de personas con SD benefician a sus familias ya que se les atribuye una serie de características positivas que pueden resultar más adaptativas o atractivas para las demás personas. Por ejemplo, con relación a los efectos indirectos, si se considera que los niños con SD *son cariñosos*, el entorno puede aumentar sus conductas de afecto, haciendo a su vez que aumenten las de ellos. En el estudio de Rodgers (1987) se observó como las madres de niños con SD les atribuyeron más rasgos de la personalidad como “feliz” o “cariñoso” que madres sin experiencia directa con la condición.

Además de la existencia de estereotipos sobre el fenotipo conductual que *favorecen* a las personas con SD, también existen otros negativos. Al ser diagnosticado con este síndrome durante el embarazo, la mayoría de las mujeres deciden interrumpirlo; Acharya (2011) llamó a este fenómeno “La desventaja del síndrome de Down”. Según Lawson (2006), los motivos de estos abortos selectivos se deben a una percepción negativa de la discapacidad intelectual, anticipando mayores cargas de crianza y una disminución de la calidad de vida en comparación con niños sin DI.

La investigación de la ventaja del síndrome de Down se ha llevado a cabo durante varias décadas, estudiando a familias en su conjunto. Además, se ha comparado a estas personas con otras sin discapacidad, con discapacidades de etiologías distintas y con diferentes variables de medición. Aunque no en todos los estudios se han encontrado resultados que favorecen a esta ventaja, son muchas las investigaciones en las que las familias con un miembro con síndrome de Down se encuentran más beneficiadas en comparación con otras familias.

En referencia a los beneficios de la ventaja, se han evaluado a través de diferentes variables en madres de niños y adultos con SD, en padres de niños y adultos con SD, en hermanos de niños y adultos con SD y en las propias personas con síndrome de Down.

Estudios que respaldan la ventaja del síndrome de Down

La mayoría de las investigaciones han estudiado la ventaja del SD en las madres durante la niñez de sus hijos en diferentes variables de medición. Con relación al bienestar, se ha constatado que las madres de niños con SD presentan mejores puntuaciones que las madres de niños con otro tipo de discapacidad (Abbeduto et al., 2004; Fidler, Hodapp y Dykens, 2000). Además, ven el cuidado de sus hijos de manera más positiva (Sellinger y Hodapp, 2005) e informan de unas estrategias de afrontamiento proactivas, orientadas a la búsqueda de apoyo (Poehlmann, Clements, Abbeduto y Farsad, 2005). De igual forma, otros trabajos concluyen que estas madres presentan menos conflictos dentro de la familia y mayores niveles de cercanía con su familiar con discapacidad en comparación con madres con un hijo con otra discapacidad (Lewis et al., 2006). Asimismo, las madres de niños con SD informan de una mayor satisfacción con la vida, menos estrés y pesimismo, y aprecian que reciben más recompensas (Fidler, Hodapp y Dykens, 2000; Griffith, Hastings, Nash y Hill, 2010; Hodapp, Ricci, Ly y Fidler, 2003); particularmente en el área de aceptabilidad de la condición de su familiar (Hodapp, Ly, Fidler y Ricci, 2001). Además, según Skotko, Levine y Goldstein (2011a), la mayoría reportan que aman a su hijo, que están orgullosas de él y sienten que su visión de la vida es más positiva por ellos; describiéndoles a su vez, con un temperamento activo y saliente (Boström, Broberg y Bodin, 2011).

En la mayor parte de estas investigaciones en las que se evalúan variables relacionadas con las madres de niños con SD, el grupo de comparación más frecuente ha sido el de madres de niños con autismo, mostrando en la mayoría de los casos, resultados que apoyan la ventaja del síndrome de Down (Pisula, 2007; Rodrigue, Morgan y Geffken, 1990; Sanders y Morgan, 1997).

Por otro lado, se obtienen resultados semejantes en las madres cuando su hijo con SD es adolescente o se encuentra en la edad adulta. Las madres siguen presentando un mayor bienestar y un mejor afrontamiento en comparación con otras madres (Abbeduto et al., 2004). Además, las madres de los adultos con síndrome de Down informan de ambientes menos conflictivos en sus familias, tienen más satisfacción con sus relaciones sociales, menos estrés y perciben menos carga de cuidado (Seltzer, Krauss y Tsunematsu, 1993).

Los estudios que incluyen en su evaluación también a padres de personas con DI en general y con SD en particular, son mucho menos frecuentes. En ellos, los padres de niños con síndrome de Down presentan redes de apoyo social más satisfactorias (Shonkoff, Hauser-Cram, Krauss, Upshur y Sameroff, 1992) y un afrontamiento centrado en el problema (Hauser-Cram et al., 2001); de esta forma, experimentan menos efectos negativos -estrés y depresión- (Fidler, Hodapp y Dykens, 2000) y más efectos positivos -bienestar- en comparación con padres de niños con otras discapacidades (Dabrowska y Pisula, 2010; Ricci y Hodapp, 2003). Según la publicación de Skotko, Levine y Goldstein (2011a) los padres de niños con SD reportan orgullo y amor, informando de perspectivas de vida más positivas gracias a su hijo con síndrome de Down.

A su vez, al igual que en los estudios con madres, en las investigaciones en las que se evalúa a padres de adolescentes y adultos jóvenes con síndrome de Down se demuestra la ventaja. Éstos presentan puntuaciones más bajas en síntomas depresivos y tienen un nivel significativamente más bajo de pesimismo (Hartley, Seltzer, Head y Abbeduto, 2012) cuando se comparan con padres de niños con otro tipo de discapacidad intelectual.

Respecto a las publicaciones en las que las personas evaluadas son hermanos de niños con síndrome de Down en comparación con hermanos de niños con una discapacidad de etiología mixta, la ventaja también está presente. Fisman, Wolf, Ellison y Freeman (2000) compararon durante 3 años a hermanos de niños con Trastorno Generalizado del Desarrollo, con SD y sin discapacidad intelectual. Los resultados más significativos indicaron que los hermanos de niños con SD presentaban menos problemas de adaptación, de angustia y de depresión cuando se comparaban con el grupo de Trastorno Generalizado del Desarrollo, sin mostrar esta ventaja cuando el grupo de comparación era el grupo sin DI. En otras investigaciones como la de Cuskelly y Gunn (2006), se compararon a hermanos de niños con SD con hermanos de niños sin

discapacidad intelectual y evaluaron su ajuste a través de la percepción de los padres. No se encontraron diferencias significativas en las medidas de externalización e internalización de conductas, percepción de competencias y autoestima de ambos grupos, por lo que pudieron concluir que tener a un hermano con síndrome de Down no implica un mal ajuste. En el trabajo de Skotko, Levine y Goldstein (2011c), se estudió únicamente a hermanos de personas con síndrome de Down. La mayoría de ellos reportaron que amaban a su hermano y que pensaban que eran mejores personas como resultado de su familiar con SD.

También se han realizado estudios comparativos de hermanos de adultos con síndrome de Down y con otro tipo de discapacidad intelectual. En la publicación de Orsmond y Seltzer (2007), los familiares del grupo con SD frente a los de autismo tenían más contacto con su hermano, informaban de niveles más altos de afecto positivo y eran menos pesimistas sobre el futuro de su hermano o hermana. En una misma línea, otros autores estudiaron a 1300 hermanos de adultos con discapacidad. Observaron que los hermanos de las personas con SD en comparación con autismo, mostraban menos síntomas depresivos, y relaciones más cálidas y estrechas (Hodapp y Urbano, 2007).

Con relación a las investigaciones que han estudiado la ventaja en los propios niños con síndrome de Down, existe muy poca literatura al respecto. En estos casos las medidas no se suelen evaluar a través de los niños, siendo los padres, profesores y tutores, los principales informantes. Por otro lado, también hay escasas publicaciones que hayan estudiado esta ventaja en la adolescencia o en la edad adulta de estas personas. Por ejemplo, en la investigación de Skotko, Levine y Goldstein (2011b) se entrevistó a personas con SD mayores de 12 años sin compararlos con otros grupos con discapacidad. Sus resultados mostraron que la mayoría de ellos se sentían felices con sus vidas y les gustaba lo que eran y cómo se veían. A su vez, reportaron amor por sus familiares y facilidad para hacer amigos.

Con relación al estudio de las personas con síndrome de Down en la vida adulta, se llevó a cabo una investigación en el que se comparó la independencia en la adultez de personas con SD con personas con autismo. Los resultados reflejaron que las personas con síndrome de Down tenían más independencia residencial y contacto con amigos. Además, manifestaron más capacidades funcionales y menos analfabetismo, exhibieron menos problemas de comportamiento y tenían más necesidades de servicio satisfechas en comparación con los adultos con TEA (Esbensen, Bishop, Seltzer, Greenberg y Taylor, 2010).

Ahora bien, aunque en la mayor parte de los trabajos existentes sobre la ventaja del síndrome de Down se estudien variables relacionadas con la dinámica familiar percibida como las que se han mencionado -estrés, afrontamiento, bienestar, pesimismo, etc.-, y medidas a través de los diferentes miembros de la familia, existen otros en los que esta ventaja sigue estando presente

cuando se incluyen variables aparentemente diferentes como la tasa de divorcios o la percepción del desarrollo del lenguaje en sus hijos -entre otras-. Por ejemplo, Urbano y Hodapp (2007) examinaron la prevalencia de divorcios comparando a familias con SD, con discapacidad intelectual de etiología mixta y sin discapacidad. La muestra fue de 647, 10283 y 361154 personas respectivamente. Se observó que las tasas de divorcio en las familias de los niños con síndrome de Down eran menores que en los otros dos grupos. Sin embargo, se produjo una proporción más alta en los dos primeros años después del nacimiento. Se concluyó que los padres de personas con SD tenían más probabilidad de divorciarse si eran más jóvenes, si no se habían graduado en la escuela secundaria y si vivían en zona rural.

En una publicación reciente en la que también se amplía la investigación sobre esta ventaja, se estudió, además del estrés parental, las percepciones del desarrollo del lenguaje de sus hijos con SD y con discapacidad intelectual de etiología mixta. Los primeros, reportaron menores niveles de estrés y tuvieron una percepción menos grave de las dificultades en la comunicación de sus hijos, a pesar de que los dos grupos presentaban habilidades lingüísticas similares (Smith, Romski, Sevcik, Adamson y Barker, 2014).

Estudios que no respaldan o que respaldan parcialmente la ventaja del síndrome de Down

A pesar de la extensa literatura que respalda la ventaja del síndrome de Down, no todos los estudios constatan estos datos. Hay investigaciones en las que no queda clara su existencia, en las que se ofrecen resultados contradictorios o en las que esta ventaja desaparece. En la mayor parte de estos estudios, la ventaja no suele ser evidente cuando se controlan variables de confusión como variables sociodemográficas -la edad de la madre, los ingresos de los padres o la edad del niño entre otros- (Abbeduto et al., 2004; Blacher y McIntyre, 2006; Cahill y Glidden, 1996; Glidden y Cahill, 1998; Glidden, Grein y Ludwig, 2014; Stoneman, 2007). Por ejemplo, en el estudio de Cahill y Glidden (1996), al comparar una muestra de niños con síndrome de Down con otra con discapacidad intelectual de etiología mixta, se encontró que los padres de niños con SD reportaban menos estrés. Sin embargo, cuando los niños se emparejaron en el nivel de funcionamiento, en edad, en el ingreso económico y en el estado del matrimonio de los padres, esta diferencia desapareció. Según Stoneman (2007), los resultados de las investigaciones que respaldan a la ventaja del SD, se deben a que generalmente se han replicado de los primeros estudios existentes y no se han controlado determinadas variables relevantes en el estudio de esta ventaja. En su análisis, examinó el bienestar de padres de niños con síndrome de Down; cuando no se tuvieron en cuenta las diferencias sociodemográficas, sus resultados replicaban a los de investigaciones anteriores respaldando la existencia de la ventaja del SD. Sin embargo, cuando se controlaron los ingresos familiares, ésta desapareció en todas las medidas de bienestar de los padres.

Corrice y Glidden (2009) ampliaron la muestra de la investigación de Cahill y Glidden (1996) y examinaron si la ventaja se mantenía constante en madres de niños entre los 12 y 18 años. Cuando no se controlaron las variables de edad materna y de conducta adaptativa del niño, la ventaja se mostró en las variables de recompensa personal y bienestar subjetivo. No obstante, la ventaja desapareció cuando posteriormente se controlaron estas variables. Igualmente, Mitchell y Hauser-Cram (2010) mostraron cómo el tipo de discapacidad influía en la calidad de la relación el padre-hijo, pero no en la de madre-hijo, desapareciendo después cuando se incluía la situación socioeconómica en el modelo. Por su parte, Esbensen y Seltzer (2011) examinaron los factores que podrían explicar el bienestar de madres de personas con SD y con otras discapacidades intelectuales. Estudiaron, por un lado, los factores que se relacionaban con el fenotipo conductual, y por otro, los denominados artefactos -el resultado de las diferencias entre grupos como el nivel educativo, el ingreso familiar, la edad materna, etc.-. El fenotipo conductual predijo variables como un menor pesimismo, una mayor satisfacción con la vida, y una mejor calidad de la relación madre-hijo. Sin embargo, dos variables que han sido conceptualizadas como artefactos por otros autores -mayor edad maternal y apoyo social-, predijeron variables como mayores niveles de carga de cuidado. Por tanto, se concluye que la ventaja del síndrome de Down para algunas medidas se explica por el fenotipo conductual, siendo además para otras parcialmente artefactual.

En esta dirección, un estudio reciente (Glidden, Grein y Ludwig, 2014) indica la existencia de la ventaja aunque estando limitada a algunas variables y al momento de medición. Sus resultados mostraron que cuando se medían variables no relacionadas directamente con los niños y sí con los padres -bienestar subjetivo global, bienestar subjetivo actual y depresión-, no había evidencia de la ventaja. No obstante, sí que se encontró en las tres variables relacionadas con los niños -recompensas y preocupaciones en las relaciones sociales de sus hijos, bienestar subjetivo de los niños e impacto de la crianza-. En las dos primeras, después de haber controlado las diferentes variables de confusión, la ventaja no fue significativa. Sin embargo, en el impacto de crianza, la ventaja siguió siendo evidente después del control de dichas variables, produciéndose en mayor medida cuando los hijos tenían de promedio 26 años. Como conclusión de la investigación, el fenotipo conductual -conducta adaptativa- de los niños con SD se relaciona con el impacto de la crianza en sus padres; y, además, se explica parcialmente por artefactos tales como la edad y el ingreso de los progenitores.

Estudios que pueden explicar la ventaja del síndrome de Down

En resumen, aunque hay evidencia que respalda la ventaja del síndrome de Down, existe una gran controversia al respecto. Como se ha señalado, algunos estudios han determinado que se debe a que no se han controlado variables de confusión, aunque hay otras explicaciones. Una

posible explicación que se ha mencionado, es a causa del fenotipo conductual o características asociadas al síndrome (Hodapp, 2007); a partir de éste, se pueden explicar una gran parte de las variables medidas a través de los padres (Hauser-Cram et al., 2001) y en distintas edades de sus hijos (Dykens, Shah, Sagun, Beck y King, 2002). Por otro lado, se puede deber a los estereotipos positivos del fenotipo conductual, ya que los niños y adultos con SD podrían suscitar reacciones positivas en los demás debido a ciertas conductas que tienen relación con la etiología, soliendo describirse como “cariñosos”, “encantadores”, “sociables”, “agradables”, “alegres”, “de fácil temperamento”, etc.

A su vez, existe evidencia de que los niños y adolescentes con síndrome de Down no suelen mostrar patología severa (Dykens y Kasari, 1997; Myers y Pueschel, 1991) y suelen tener pocas manifestaciones de conductas desadaptativas o de problemas de comportamiento (Blacher, Baker y Kaladjian, 2013; Dykens, 2000; Ricci y Hodapp, 2003); lo que puede explicar por ejemplo, un menor estrés maternal (Eisenhower, Baker y Blacher, 2005), un mayor bienestar en las madres (Blacher y McIntyre, 2006) y un mejor funcionamiento familiar (Povee, Roberts, Bourke y Leonard, 2012). Por otra parte, muestran un mayor número de comportamientos positivos, como flexibilidad de comportamiento, en comparación con personas con otras discapacidades (Didden et al., 2008). Asimismo, presentan puntuaciones más altas en competencias sociales (Kasari y Freeman, 2001; Rosner, Hodapp, Fidler, Sagun y Dykens, 2004), algo que puede generar menos efectos negativos en sus familias. De la misma forma, durante sus primeros años de vida, mantienen un contacto visual de manera más frecuente con sus madres durante el juego en comparación con niños con otras discapacidades o sin discapacidad, lo que también puede contribuir a suscitar estas reacciones positivas en los padres (Kasari, Mundy, Yirmiya y Sigman, 1990).

Otra posible explicación que se le puede dar a esta ventaja es que el SD probablemente sea el síndrome que más se conoce en la población en general, lo que supondría conductas positivas por parte de ésta, generando a su vez un menor impacto en la familia. Además, se tiene un acceso más fácil a diversas organizaciones de síndrome de Down que proporcionan apoyo e información en comparación con otras discapacidades (Hodapp, 2007). Así, estas familias pueden recibir más apoyo tanto por parte de sus familiares, como social (Poehlmann, Clements, Abbeduto y Farsad, 2005). Por su parte, Hodapp (2007) apunta que la imagen positiva de los niños y adultos con SD en los medios de comunicación puede explicar en parte la ventaja. De tal forma que la audiencia, al conocer mayoritariamente a esta población, va a tener una respuesta más positiva de la que tendría con otros con una discapacidad que no conocen o que tiene un mayor estigma social.

Por otro lado, algunos padres de niños con síndrome de Down pueden saber el diagnóstico de su hijo al nacer, pudiéndose preparar durante el embarazo (Phillips, 2014). De esta manera, podrían tener diferentes expectativas que los padres de niños con otra discapacidad cuyo diagnóstico sea dado más tarde o no esté claro (Smith, Ronski, Sevcik, Adamson y Barker, 2014). La edad materna también juega un papel importante en esta ventaja. Puesto que se da con mayor frecuencia en madres de edades más avanzadas, pueden tener un nivel socioeconómico mayor y ser más responsables y maduras (Abbeduto et al., 2004; Blacher, Baker y Kaladjian, 2013; Dykens, Hodapp y Finucane, 2000; Urbano y Hodapp, 2007).

Asimismo, se ha de considerar la naturaleza transversal que suelen tener estos estudios comparativos. Por ejemplo, en la investigación de Most, Fidler, LaForce-Booth y Kelly (2006) se concluyó que el estrés de las madres con hijos con SD iba en aumento, pudiéndose deber al lento desarrollo que se suele producir en estos niños. Por ello se podría explicar la ventaja, estando latente en un primer momento debido al lento desarrollo de estos niños, pero disminuyendo a medida que crecen.

Esta ventaja se puede atribuir también a que las familias que tienen un peor funcionamiento o que tienen un miembro con SD que no se parecen a la media, que pueda tener comorbilidad o problemas de conducta, en algunos estudios no participan en la muestra (Cuskelly, Grace y Hayden, 2009), pudiendo ocurrir lo mismo con otro tipo de discapacidades. Una dificultad adicional en estos estudios es la comparación de grupos de personas con diferentes discapacidades. La ventaja del SD ha sido más llamativa cuando los niños con síndrome de Down se han comparado con otros que tienen autismo (Abbeduto et al., 2004; Blacher y McIntyre, 2006). Los niños con TEA pueden tener grandes dificultades en el ámbito social y en el comportamiento adaptativo, por lo que en exclusividad, no es un grupo adecuado de comparación para la demostración de la ventaja del SD. Por tanto, algunos autores en lugar de referirse a ésta, hablan de una “desventaja del autismo” (Hodapp, Ricci, Ly y Fidler, 2003; Stoneman, 2007).

Estudios sobre la ventaja del síndrome de Down en la calidad de vida

A pesar de las investigaciones realizadas, existe poca literatura hasta la fecha que haya examinado la ventaja del síndrome de Down en la calidad de vida de personas con discapacidad intelectual. Asimismo, la mayoría de estudios se han realizado con muestras de niños pequeños, sin incluir las percepciones de las propias personas con DI, así como de sus familiares, cuando estas personas se encuentran en la edad adulta.

Por un lado, el concepto de calidad de vida individual se define como un estado de bienestar personal que: a) es multidimensional; b) tiene propiedades universales y ligadas a la cultura; c)

tiene componentes objetivos y subjetivos; y d) está influenciado por características personales y factores ambientales (Schalock, Keith, Verdugo y Gómez, 2010; Schalock y Verdugo, 2002; 2007; Verdugo, 2006). Por otro lado, el concepto de calidad de vida familiar ha surgido en la literatura como una extensión de la calidad de vida individual. La calidad de vida centrada en la familia está estrechamente vinculada a la calidad de vida centrada en la persona, siendo además influenciada significativamente por factores personales y socioculturales (Schalock y Verdugo, 2002). Por su parte, Brown y Brown (2003) definieron el concepto de calidad de vida familiar como la conjunción de la calidad de vida de los miembros de manera individual, y de los factores que afectan a toda la familia. Asimismo, los jóvenes con DI residen a menudo en su casa hasta bien llegada la edad adulta, resaltando así la importancia de describir la calidad de vida familiar para esta población (Foley et al., 2014). Park, Turnbull y Turnbull (2002), apuntan que una familia experimenta calidad de vida cuando los miembros tienen sus necesidades cubiertas, disfrutan de su vida juntos y cuentan con oportunidades para perseguir y alcanzar metas que son trascendentales para ellos.

Respecto a las publicaciones sobre calidad de vida familiar, se cuenta con pocas investigaciones que evalúen la calidad de vida comparando a familias con un miembro con síndrome de Down con otras con otro tipo de discapacidad intelectual. En la de Brown, MacAdam-Crisp, Wang y Iarocci (2006), se compararon familias con un miembro con SD, con TEA y sin discapacidad. Las familias que no tenían un familiar con DI, alcanzaron niveles significativamente más altos de satisfacción en todos los dominios. Aquellas que tenían un familiar con SD, obtuvieron mejores puntuaciones en la calidad de vida que los del grupo con autismo.

Con relación a la calidad de vida individual, por un lado se ha medido en familiares de personas con discapacidad intelectual. En una investigación reciente con población taiwanesa, se observó que las madres de los niños con síndrome de Down tenían puntuaciones significativamente más altas en calidad de vida que las de los niños con parálisis cerebral (Tekinarslan, 2013). Por otro lado, se ha medido a través de las propias personas con DI, como en el estudio de Van Gameren-Oosterom et al., (2011), en el que se evaluó la calidad de vida de niños con síndrome de Down en comparación con niños sin discapacidad a través de las percepciones parentales. Los resultados mostraron una calidad de vida menos favorable en el grupo con SD aunque en algunas de las escalas casi no se observaron diferencias en ambos grupos como en la de reportar quejas físicas y emociones positivas y negativas.

A parte de algunos de estos estudios comparativos, la variable calidad de vida ha sido examinada en familias con niños con discapacidad intelectual en diferentes países (Davis y Gavidia-Payne, 2009; Walden, Pistrang y Joyce, 2000); identificando su propia calidad de vida

como buena (Canelo, Sardón, de las Hazas y González, 2008). Asimismo, existen otras investigaciones en las que se ha analizado esta variable específicamente con familias con un hijo con síndrome de Down, examinándola a través de diferentes miembros. Cuando ésta se ha evaluado en ambos progenitores de personas con síndrome de Down, éstos la han considerado como buena (Buzatto y Beresin, 2008). En una publicación en la que se ha estudiado la misma pero a través de las madres de niños con SD, los resultados dependían de diferentes factores, obteniendo peores resultados los que vivían en zonas rurales, con bajo nivel de educación y con niveles de ingresos más bajos (Geok, Abdullah y Kee, 2013).

Como se deriva de lo expuesto, en el marco actual existen pocas publicaciones en general y en España en particular, que comparen a un grupo de personas con SD con personas otro tipo de discapacidad intelectual en la variable de calidad de vida. Además, los artículos comparativos existentes que se han mencionado, presentan muestras pequeñas, pudiéndose cuestionar así la validez de algunas de las conclusiones obtenidas. Igualmente, en relación con la literatura sobre la calidad de vida y el estado de salud de las personas con síndrome de Down, se ha prestado más atención a los niños y adolescentes que a los adultos (Bertoli et al., 2011), estando el estudio de estos últimos muy limitado (Carr, 2008).

Se considera además fundamental la investigación en calidad de vida en esta población, ya que tener un hijo con discapacidad intelectual, en la mayoría de los casos, supone un aumento de las demandas emocionales, físicas y económicas -entre otras-. Esto, a su vez, puede suponer un gran impacto en el funcionamiento y el bienestar de la familia (Dodd, Zabriskie, Widmer y Eggett, 2009), afectando a la calidad de la vida familiar en gran medida (Wiley y Renk, 2007).

Se ve necesario continuar investigando en esta línea, siendo el propósito principal de este estudio evaluar la calidad de vida familiar e individual -autoinformada y heteroinformada- en personas adultas con discapacidad intelectual con y sin SD; pretendiéndose a su vez determinar si hay evidencia de la ventaja del síndrome de Down. Asimismo, se pretende evaluar las medidas de calidad de vida en función del género.

Las hipótesis que se plantean son, en primer lugar, que las familias con un miembro con SD tendrán una mayor calidad de vida familiar en comparación a las familias con un miembro con otra discapacidad intelectual; y, en segundo lugar, que las personas con síndrome de Down tendrán una mayor calidad de vida individual -autoinformada y heteroinformada- que el otro grupo sin SD. Con relación al análisis de la calidad de vida en función del género, no se espera encontrar diferencias entre ambos grupos.

En resumen, aunque existe evidencia del fenómeno de la ventaja del síndrome de Down, en base a datos anteriores de otras investigaciones se predice que la ventaja del síndrome de Down

será artefactual en cierta medida, especialmente en relación a la edad de los padres y al nivel de ingresos, y los resultados serán explicados por las diferencias de grupo en el resto de medidas.

Método

Participantes

La muestra del estudio la formaron un total de 168 personas, de las cuales 84 tenían discapacidad intelectual y 84 eran familiares de estas personas, contándose con la participación de un progenitor por cada joven. Las personas con DI pertenecían al programa DEMOS de la Universidad Pontificia de Comillas, un proyecto de formación para el empleo e inclusión universitaria para jóvenes con discapacidad intelectual de dos años de duración. De éstas, un 51,2% de la muestra eran mujeres y un 48,8% hombres con edades comprendidas entre los 18 y los 35 años, situándose la media de edad en los 21,41 años. El 56% se encontraba cursando los estudios de técnico auxiliar en tecnologías de la información y la comunicación, y el 44% el programa de técnico auxiliar en entornos educativos. De ellos, 20 tenían síndrome de Down y 64 tenían discapacidad intelectual de etiología mixta. Del grupo con SD, la media de edad era de 21,55 años, siendo un 40% hombres y un 60% mujeres. Igualmente, un 40% estaban cursando los estudios de técnico auxiliar en entornos educativos frente a un 60% que cursaba los de técnico auxiliar en tecnologías de la información y la comunicación. Respecto al grupo de etiología mixta, la media de edad era de 21,38 años, siendo más hombres -51,5%- que mujeres -48,5%-. Asimismo, una mayoría también realizaba los estudios de tecnología, un 61%, frente a un 39% que realizaba los de educación.

Respecto a los progenitores, un 26% de los participantes fueron hombres y un 74% mujeres con edades comprendidas entre los 39 y 72 años, siendo la media de edad de 56,53 años. En cuanto a su situación laboral, un 54,8% se encontraba trabajando a jornada completa, un 13,7% trabajando a tiempo parcial, un 5,5% estaba desempleado buscando trabajo y un 26% eran amos de casa o se encontraban desempleados y sin buscar empleo. La mayoría de las familias vivían en una localidad de más de 20000 habitantes -86,1%- frente a un 13,9% que vivía en una de 5000 a 20000 habitantes.

Instrumentos

Escala de Calidad de Vida Familiar (Verdugo, Rodríguez y Sainz, 2009). Esta escala tiene como objetivo medir la percepción de la calidad de vida familiar así como la percepción de los servicios que reciben por su familiar con discapacidad intelectual. Está formada por tres subescalas; una primera sección en la que se evalúan datos sociodemográficos; una segunda en la que se evalúan los apoyos y servicios percibidos por la familia y una tercera en la que se evalúa la calidad familiar. La subescala de apoyos y servicios está compuesta por 28 ítems con

respuestas “no”, “sí”, “sí, ninguno”, “sí, alguno pero no suficiente”, “sí, suficiente”. La subescala de calidad de vida familiar tiene 50 ítems; 25 de ellos van desde 1 “poco importante” a 5 “importantísimo”, los otros 25 tienen opción de respuesta desde 1 “muy insatisfecho” a 5 “muy satisfecho”. La escala tiene un alfa de Cronbach en esta muestra de ,930 en total; un ,621 en apoyos y servicios; y un ,937 en la calidad de vida familiar.

Escala INICO-FEAPS: Evaluación Integral de la Calidad de Vida de Personas con Discapacidad Intelectual o del Desarrollo (Verdugo et al., 2013). Esta escala tiene como objetivo la evaluación de medidas personales relacionadas con calidad de vida. Consta de dos subescalas: un autoinforme -completado por la persona con discapacidad intelectual- y un informe de otras personas -completado por otra persona cercana a ésta: profesional, familiar, tutor, etc.-. La subescala autoinforme se ha diseñado para aplicarla a personas con DI con adecuadas habilidades de lenguaje receptivo y expresivo. Ambas subescalas cuentan con 72 ítems paralelos, agrupados en 8 ámbitos diferentes: autodeterminación, derechos, bienestar emocional, inclusión social, desarrollo personal, relaciones interpersonales, bienestar material y bienestar físico. Todos los ítems cuentan con un formato de respuesta que incluye cuatro opciones de frecuencia “nunca”, “algunas veces”, “frecuentemente” y “siempre”. La escala cuenta con un alfa de Cronbach total de ,894 en esta muestra; un alfa de Cronbach de ,913 en la versión “Informe de otras personas”; y un ,848 en la versión “Autoinforme”.

Procedimiento

El método de muestreo fue intencional o deliberado, no probabilístico, seleccionando de forma directa a los sujetos de la investigación. Respecto a la dimensión ética del estudio, la participación fue voluntaria, no estuvo retribuida y previamente a su participación se solicitó el consentimiento informado tanto a los participantes como a sus familiares. Asimismo, se informó de los procedimientos previstos para proteger la información de tal manera que aseguraran el anonimato y la confidencialidad a todos los participantes del estudio.

La recogida de datos se ha llevado a cabo durante el periodo comprendido entre el 2012 y el 2015 por el Instituto de la Familia de la Universidad Pontificia de Comillas como parte del proceso de admisión al programa DEMOS. La aplicación de las escalas se realizó por personal cualificado perteneciente a dicho instituto, de forma individual y sin límite de tiempo.

Análisis de datos

Se realizaron análisis descriptivos y de frecuencias para describir las características sociodemográficas de los participantes en el estudio. Asimismo, antes de realizar los análisis se comprobó que ambos grupos estuvieran balanceados.

Se aplicó en primer lugar la prueba Kolmogorov-Smirnov y, en segundo lugar, se siguieron los criterios de asimetría y curtosis propuestos por Curran, West y Finch (1996) para comprobar los supuestos de normalidad. Al no cumplirse, se realizaron pruebas no paramétricas para llevar a cabo los análisis estadísticos. Igualmente, para controlar las variables de edad parental y nivel de ingresos se debería haber utilizado una versión no paramétrica del análisis de covarianza, pero al no incluirla el SPSS, se utilizó esta prueba.

Por tanto, para analizar la calidad de vida tanto individual -autoinformada y heteroinformada- como familiar, se utilizó, por un lado, la prueba no paramétrica de U de Mann-Whitney; por el otro, se realizó un ANCOVA para determinar si las variables de ingresos y de edad parental estaban relacionadas con las variables de calidad de vida.

Para realizar los análisis estadísticos se utilizó el paquete estadístico SPSS -22-.

Resultados

Calidad de vida familiar en adultos con SD y controles

Como se indica en la Tabla 1, no se puede afirmar que los dos grupos difieran en calidad de vida familiar ($Mdn = 436,5$), $U = -,61$, $p = ,537$. Tampoco se puede afirmar que difieran cuando se analiza esta variable separada en dos subescalas. En la primera de percepción de apoyos y servicios, se ha obtenido una puntuación de ($Mdn = 398,5$), $U = -,91$ con una significación de $p = ,36$; y en la segunda subescala, que evalúa exclusivamente la calidad de vida familiar, la puntuación obtenida ha sido de ($Mdn = 426,5$), $U = -,74$, con una significación de $p = ,456$. Por tanto, no se puede asumir que existan diferencias en la calidad de vida familiar en función a si tiene síndrome de Down o no.

Tabla 1

U de Mann Whitney, Media y Desviación Típica de la Calidad de vida familiar

| | Síndrome de Down | Etiología mixta | U | Z | p |
|--------------------------------|------------------|-----------------|-------|-------|-----|
| | M ± SD | M ± SD | | | |
| Calidad de vida familiar total | 2,85 ± ,76 | 3,01 ± ,61 | 436,5 | -,61 | ,53 |
| Apoyos y servicios | 1,76 ± ,67 | 1,54 ± ,57 | 398,5 | -,91 | ,36 |
| Calidad de vida familiar | 3,46 ± 1,22 | 3,86 ± ,93 | 426,5 | -7,45 | ,45 |

Nota: M=Media SD=Desviación Típica

Calidad de vida individual heteroinformada y autoinformada en adultos con SD y controles

Con relación a la calidad de vida individual, como se refleja en la Tabla 2, al compararse los grupos en la puntuación total de esta variable -incluyendo a las dos subescalas- no se puede considerar que difieran el grupo con síndrome de Down y el grupo sin síndrome de Down (Mdn

= 395), $U = -1,92$, $p = ,054$. Sin embargo, respecto a la calidad de vida individual autoinformada, los resultados han indicado que existen diferencias entre ambos grupos ($Mdn = 254,5$), $U = -2,41$, $p = ,016$. Las personas sin SD presentan una media de 3,26, mientras que en las personas con SD es de 3,03. Con relación a la calidad de vida individual heteroinformada, también se han encontrado diferencias entre los dos grupos ($Mdn = 122,5$), $U = 2,36$, $p = ,018$. En este caso, las personas con SD tienen una media superior de 3,51 frente a la media de 3,27 del grupo sin SD.

De manera más específica, en cuanto a las 8 divisiones de las dos subescalas de calidad de vida individual, en su mayoría no se puede asumir que difieran ambos grupos. En las que sí difirieron en la subescala de calidad de vida heteroinformada fueron en las áreas de desarrollo personal ($Mdn = 113$), $U = 2,57$, $p = ,01$ con una media de 3,51 en las personas con SD y de 3,15 en el grupo sin SD; y en el área de bienestar físico ($Mdn = 104,5$), $U = -2,76$, $p = ,006$, siendo la media en el grupo de síndrome de Down de 3,85 y en el de etiología mixta de 3,59.

En cuanto a las áreas en las que hubo diferencias de la subescala de calidad de vida individual autoinformada, fueron en primer lugar, en derechos ($Mdn = 244,5$), $U = -2,56$, $p = ,01$ con una media superior en el caso del grupo sin SD (3,15) respecto a la de SD (2,77); en inclusión social ($Mdn = 263,5$), $U = -2,29$, $p = ,022$, con una media de 3,27 en el grupo de etiología mixta y de 2,95 en el de SD; en relaciones interpersonales ($Mdn = 248$), $U = -2,21$, $p = ,027$ y en bienestar material ($Mdn = 157,5$), $U = -1,98$, $p = ,047$ con medias superiores en el grupo que tiene discapacidad intelectual de etiología mixta respecto al grupo con síndrome de Down, siendo respectivamente de 3,26 y 3,57 en el primer grupo, frente a 2,93 y 3,33 en el segundo.

Tabla 2

U de Mann Whitney, Media y Desviación Típica de la Calidad de vida individual

| | Síndrome de Down | Etiología Mixta | U | Z | p |
|--|------------------|-----------------|-------|-------|-----|
| | M ± SD | M ± SD | | | |
| Calidad de vida individual total | 2,2 ± ,96 | 2,77 ± ,79 | 395 | -1,92 | ,05 |
| Calidad de vida individual autoinformada | 3,03 ± ,4 | 3,26 ± ,3 | 254,5 | -2,41 | ,01 |
| Autodeterminación | 3,02 ± ,46 | 3,05 ± ,44 | 389 | -,5 | ,61 |
| Derechos | 2,77 ± ,53 | 3,15 ± ,48 | 244,5 | -2,56 | ,01 |
| Bienestar emocional | 3,16 ± ,49 | 3,18 ± ,39 | 421 | -,04 | ,96 |
| Inclusión social | 2,95 ± ,46 | 3,27 ± ,42 | 263,5 | -2,29 | ,02 |
| Desarrollo personal | 3,34 ± ,38 | 3,33 ± ,38 | 416,5 | -,1 | ,91 |
| Relaciones interpersonales | 2,93 ± ,52 | 3,26 ± ,46 | 248 | -2,21 | ,02 |
| Bienestar material | 3,33 ± ,43 | 3,57 ± ,34 | 259 | -1,98 | ,04 |
| Bienestar físico | 3,39 ± ,39 | 3,42 ± ,45 | 376,5 | -,204 | ,83 |

| | | | | | |
|--|------------|------------|-------|-------|------|
| Calidad de vida individual heteroinformada | 3,51 ± ,23 | 3,27 ± ,27 | 122,5 | -2,36 | ,01 |
| Autodeterminación | 3,27 ± ,34 | 2,95 ± ,48 | 143 | -1,93 | ,05 |
| Derechos | 3,53 ± ,4 | 3,31 ± ,45 | 168,5 | -1,4 | ,16 |
| Bienestar emocional | 3,45 ± ,47 | 3,18 ± ,49 | 152 | -1,74 | ,08 |
| Inclusión social | 3,46 ± ,42 | 3,29 ± ,4 | 170 | -1,36 | ,17 |
| Desarrollo personal | 3,51 ± ,18 | 3,15 ± ,41 | 113 | -2,57 | ,01 |
| Relaciones interpersonales | 3,22 ± ,57 | 3,02 ± ,52 | 169 | -1,39 | ,16 |
| Bienestar material | 3,77 ± ,17 | 3,65 ± ,22 | 157,5 | -1,65 | ,09 |
| Bienestar físico | 3,85 ± ,13 | 3,59 ± ,33 | 104,5 | -2,76 | ,006 |

Nota: M=Media SD=Desviación Típica

Análisis del impacto de los ingresos y edad en la calidad de vida.

En primer lugar, no se puede asumir una relación entre la calidad de vida individual heteroinformada y los ingresos ($F(0,22, 1) = -,884 > ,01$), ni con la edad parental ($F(0,95, 1) = -,333 > ,01$). En segundo lugar, tampoco se puede considerar una relación entre la calidad de vida individual autoinformada y los ingresos ($F(3,23, 1) = -,078 > ,01$), ni con la edad parental ($F(,05, 1) = -,812 > ,01$). Asimismo, cuando se realizan los análisis teniendo en cuenta a la variable de calidad de vida individual total, se obtienen unos resultados semejantes, en los que no se puede afirmar una relación entre esta variable y los ingresos familiares ($F(,05, 1) = -,288 > ,01$), ni de dicha variable con la edad parental ($F(,97, 1) = -,326 > ,01$). Por último, con relación a la calidad de vida familiar, ocurre lo mismo que con las variables anteriores, no se puede considerar que exista una relación entre esta variable y los ingresos ($F(,19, 1) = -,658 > ,01$), ocurriendo lo mismo con la edad parental ($F(,76, 1) = -,386 > ,01$). Por tanto, se excluyeron las dos covariables del modelo.

Calidad de vida familiar e individual en adultos con SD y controles en función al género

Se ha examinado mediante la prueba no paramétrica de la U de Mann-Whitney la calidad de vida individual y familiar en función al género de los participantes. En este caso, se han encontrado diferencias en la calidad de vida familiar apoyos y servicios ($Mdn = 421,5$), $U = -2,54$, $p = ,011$. Dichas diferencias residen en el que los progenitores de los participantes percibieron un mayor número de apoyos y servicios cuando sus hijos eran de género masculino que cuando eran de género femenino con medias de 50,71 y 38,83 respectivamente.

En ninguna de las demás variables -incluidas todas las escalas y las subescalas- se puede asumir que difirieran los dos grupos siendo estos los resultados de las variables de agrupación más grandes: calidad de vida familiar total ($Mdn = 669,5$), $U = -1,23$, $p = ,87$; calidad de vida familiar ($Mdn = 569,5$), $U = -1,23$, $p = ,216$; calidad de vida individual total ($Mdn = 689,5$), $U =$

-1,05, $p = ,29$; calidad de vida individual autoinformada ($Mdn = 551$), $U = -,35$, $p = ,72$; y calidad de vida individual heteroinformada ($Mdn = 338,5$), $U = -1,26$, $p = ,20$.

Discusión

El propósito de este estudio fue explorar la ventaja del síndrome de Down, centrándose específicamente en: a) evaluar la calidad de vida familiar; b) evaluar la calidad de vida individual autoinformada y heteroinformada; c) determinar si podría explicarse en parte o en su totalidad por covariables; y d) evaluar la calidad de vida en función del género. Al plantear las hipótesis se esperaba encontrar una ventaja para el grupo con SD, tanto en la calidad de vida individual como en la familiar. Asimismo, se planteaba que al controlar las variables de ingresos y edad parental, la ventaja encontrada sería menor o desaparecería. De la misma forma, no se esperaba encontrar diferencias en ambos grupos cuando se analizara la calidad de vida en función del género.

Los hallazgos encontrados sugieren la existencia de la ventaja del síndrome de Down en algunas variables, en otras no se encuentran diferencias entre ambos grupos y en un tercer caso, algunos de los resultados reflejan un beneficio para el grupo con discapacidad intelectual de etiología mixta. De manera más detallada, en los análisis llevados a cabo no se encontró la ventaja en ninguna de las medidas de calidad de vida familiar -calidad de vida familiar total, calidad de vida familiar y apoyos y servicios-. Igualmente, tampoco se encontró en la variable de calidad de vida individual total. Para otras variables sin embargo, sí que se encontraron medidas favorables al grupo con síndrome de Down, como la calidad de vida individual heteroinformada y algunos de las subescalas pertenecientes a los ámbitos de calidad de vida individual autoinformada -bienestar físico y derechos- y de calidad de vida individual heteroinformada -desarrollo personal y bienestar físico-. Asimismo, se encontraron resultados favorables al grupo con discapacidad intelectual de etiología mixta en las variables de calidad de vida individual autoinformada y en tres de las subescalas de esta misma variable: inclusión social, relaciones interpersonales y bienestar material.

Respecto a la calidad de vida familiar, las familias con un miembro con SD, además de no tener la percepción de recibir un mayor número de apoyos y servicios, tampoco presentan una calidad de vida familiar superior al grupo de personas con otro tipo de DI. Aunque no exista una literatura extensa con la que poder comparar estos resultados, se esperaba encontrar una ventaja, en primer lugar, por la línea de investigación en la que las familias con síndrome de Down han obtenido mejores resultados en otras variables; y, en segundo lugar, por estudios como el de Brown, MacAdam-Crisp, Wang y Iarocci (2006), en el que el grupo de personas con SD obtuvieron mejores resultados cuando se compararon con un grupo que estaba compuesto por personas con trastorno del espectro autista. Sin embargo, esta discrepancia entre estudios se

puede explicar en parte por las diferencias de las muestras de comparación, ya que muchos de los estudios que han informado de una ventaja del síndrome de Down han utilizado como grupo de comparación el de familias con un miembro con autismo (por ejemplo, Blacher y McIntyre, 2006; Pisula, 2007). En contraste, la muestra de comparación en este estudio fue de etiología mixta, lo que pudo hacer que la ventaja en el grupo con síndrome de Down no fuera evidente. Así, algunos estudios que utilizan como grupos de comparación a personas con autismo pueden estar respaldando a la ventaja del SD cuando podría ser una desventaja del autismo.

Los resultados obtenidos con relación a la calidad de vida individual, tanto autoinformada como heteroinformada, resultan discordantes ya que en el primer caso, la ventaja se refleja en el grupo con discapacidad de etiología mixta y, en el segundo, en el grupo con síndrome de Down. En la mayoría de estudios hasta la fecha que han evaluado la ventaja con diferentes variables de medición, los informantes han sido los familiares de la persona con DI; y en una gran parte de estos, la ventaja ha estado presente. De la misma forma, en este estudio cuando la calidad de vida individual es informada por un familiar de los participantes, sí aparece la ventaja para el grupo con síndrome de Down. Sin embargo, cuando los informantes son las propias personas con DI, no solo desaparece la ventaja sino que el grupo de personas con otro tipo de discapacidad resulta beneficiado. Aunque la evaluación de la calidad de vida medida a través de las propias personas con discapacidad intelectual pueda mostrar controversias en cuanto a la validez, fiabilidad y confiabilidad de las respuestas (Hatton y Ager, 2002), se ve necesario contar con la opinión de la persona, más cuando la calidad de vida tiene un componente de bienestar subjetivo. Autores como Cummins (1997) apoyan la necesidad de evaluar los factores subjetivos directamente en las personas con DI. Para ello, se fundamenta en varios puntos como que las preguntas suelen ser entendibles y con un grado de abstracción adecuado; o que estas personas construyen sus percepciones y jerarquizan aspectos de la calidad de vida de manera semejante a la población sin discapacidad (Cummins, 2002).

Ahora bien, aunque algunas investigaciones no hayan encontrado diferencias significativas cuando hay diferentes informantes (Stanclife, 1999), otras discuten la fiabilidad de las mediciones de tutores o profesionales (Speller, 1996). Estudios como los de Lunsky y Bramston (2006), y Mileviciute y Hartley (2015), que evaluaron el estrés y la depresión respectivamente tanto en las personas con discapacidad intelectual como en terceros, concluyen que la versión de informe de otras personas puede dar una información útil pero en paralelo, en ningún caso como sustituta de la versión autoinforme, ya que esta última puede recoger información única sobre sus experiencias, algo que no resultaría evidente para otras personas.

Por tanto, aunque sea conveniente evaluar a terceros para obtener información complementaria, resulta fundamental utilizar medidas que evalúen directamente a las personas

objeto del estudio. Sobre todo en estos casos, en los que por un lado, son personas adultas con un grado de discapacidad que no es elevado y tienen un nivel de comprensión adecuado; y por otro, cuando las variables que se analizan en el estudio tienen componentes subjetivos que no son susceptibles de ser evaluados a través de otras personas. Con todo ello, se puede considerar que los resultados obtenidos en la calidad de vida individual heteroinformada pueden deberse a los estereotipos positivos que tienen los progenitores sobre el fenotipo conductual en el síndrome de Down. Al igual que en el estudio de Rodgers (1987), los padres de niños o adultos con SD atribuyen a sus hijos más características que pueden resultar positivas o atractivas para las demás personas que padres de personas cuya discapacidad no esté tan reconocida socialmente. En este caso, los progenitores han podido atribuir una mejor calidad de vida a sus hijos con síndrome de Down al considerarles personas “alegres”, “felices”, etc. que por un lado, la que se atribuyen ellos mismos; y por otro, que la que atribuyen los demás padres a sus hijos.

De otra parte, esta investigación arroja contradicción en cuanto a dos variables identificadas en la literatura como factores de confusión potenciales -edad parental o maternal e ingresos-, al no estar relacionadas con ninguna de las variables dependientes del modelo. Con relación a la edad parental, su no relación con dichas variables se puede atribuir a que en este estudio se contó indistintamente con la edad de ambos progenitores; mientras que en otras investigaciones (por ejemplo, Blacher, Baker y Kaladjian, 2013; Urbano y Hodapp, 2007) se incluyó solamente la edad de la madre en el modelo, al resultar ésta más influyente que la del padre en el estudio de la ventaja del síndrome de Down. Respecto a los resultados obtenidos en la variable ingresos, tampoco coinciden con estudios previos (por ejemplo, Cahill y Glidden, 1996; Stoneman, 2007), en los que sí se había encontrado una relación con dicha variable. En esta investigación, el método de muestreo fue intencional y los participantes formaban parte de un programa de formación en una universidad privada en Madrid, por tanto, el nivel socioeconómico de todos ellos era medio-alto, sin encontrarse diferencias entre ambos grupos.

Por último, se encontró que los familiares cuyo hijo con discapacidad intelectual era varón, percibían un mayor número de apoyos y servicios que cuando era mujer. Aunque no se encuentran publicaciones previas en las que se haya estudiado la relación del género de un hijo con DI con la calidad de vida familiar, o de manera más específica, con la percepción de apoyos y servicios, estos resultados no siguen la línea de otros estudios previos sobre calidad de vida familiar. Por ejemplo, en la publicación de Córdoba-Andrade, Gómez-Benito y Verdugo-Alonso (2008), no se encontraron diferencias en ambos grupos en calidad de vida en función al género de sus hijos.

En resumen, los hallazgos más sobresalientes del presente estudio indican que la ventaja del síndrome de Down en la calidad de vida, no se explicaría en ningún caso por covariables; y, más

que atribuirlo en parte al fenotipo conductual, se podría explicar por el estereotipo positivo del fenotipo conductual que tienen los progenitores de sus familiares, ya que la ventaja únicamente está presente en las personas con síndrome de Down cuando los informantes son los padres. Asimismo, las familias en las que el hijo con discapacidad intelectual es varón, perciben más apoyos y servicios que cuando es de género femenino, resultando necesarios más estudios que confirmen estos datos.

Este estudio presenta algunas limitaciones que deben ser tenidas en cuenta. Una limitación es que la muestra se basó en una muestra intencionada no aleatoria, con el objetivo de poder controlar el máximo número de variables y que ambos grupos estuvieran balanceados, y por lo tanto, la validez externa de los resultados no es alta, siendo un problema común en los estudios con este tipo de poblaciones. Asimismo, se ha de tener en cuenta que cuando se evaluó a los participantes, era de cara a la posible admisión para el programa de estudios DEMOS de la Universidad Pontificia de Comillas, por lo que pudieron contestar con datos no totalmente ajustados a su percepción debido a la deseabilidad de ser admitidos. Otra limitación común en este tipo de estudios es el tamaño de la muestra, ya que un tamaño de muestra más grande es siempre más adecuado. Los tamaños de los grupos de esta investigación no eran muy grandes, lo que limita el poder estadístico para detectar las diferencias de grupo. Por otro lado, se utilizó un análisis paramétrico -ANCOVA- ya que el SPSS no incluía una versión no paramétrica. En este caso, lo idóneo hubiera sido haber realizado un análisis no paramétrico equivalente al ANCOVA desde otro programa estadístico.

A pesar de estas limitaciones, el presente estudio representa un paso importante en la comprensión de la ventaja del síndrome de Down, ya que se ha analizado la calidad de vida tanto individual como familiar, variables que no habían sido estudiadas en profundidad, ni habían sido incluidas en los estudios anteriores en España en el estudio de dicha ventaja.

Los resultados de esta investigación tienen varias implicaciones para profesionales, para la práctica clínica y para la política destinada a apoyar a las familias de niños con discapacidad intelectual. Hay que hacer especial hincapié en el apoyo y servicios para estas familias, ya que la mayor parte de éstos se destinan a atención temprana o a familias con niños pequeños con DI, quedando su uso en la población de adolescentes y adultos con discapacidad intelectual mucho más limitado (Howlin, 2005; Taylor y Seltzer, 2010). De igual forma, hay que tener en cuenta que se pueden estar dando más apoyos y servicios a familias en las que el hijo con discapacidad es de género masculino, quedando las demás en una situación desfavorecida. Igualmente, esta investigación puede resultar útil en cuanto al diseño de intervenciones que se basen en las fortalezas tanto a nivel de funcionamiento familiar como de las propias personas con discapacidad intelectual. En su mayor parte, la literatura se ha dirigido a estudiar variables

negativas y no aquellas que traten aspectos positivos como el bienestar. Es en este sentido en el que si se fomentan las percepciones positivas de la familia, se puede contribuir a mejorar la calidad de vida de la misma (Folkman y Moskowitz, 2000; Hastings, Beck y Hill, 2005).

Resulta necesario contemplar los resultados de la presente investigación con cierta cautela, ya que se ha usado un diseño transversal para dar respuesta a una variable que no es estable en el tiempo. Por ello, para futuras investigaciones, se plantea un estudio longitudinal. De esta manera, desde un enfoque del desarrollo se podría evaluar la ocurrencia, evolución y estabilidad de la ventaja del síndrome de Down para poder determinar su existencia o no existencia y en qué medida, en su caso, es un artefacto o se puede atribuir a otros aspectos como al fenotipo conductual.

Asimismo, se recomienda reclutar y evaluar tanto a los padres como a las madres por separado ya que, además de que nos permitiría ver las diferencias de influencia de la edad parental según el progenitor, nos daría más contraste al tener otra percepción distinta de la calidad de vida tanto familiar como de su hijo con discapacidad intelectual. Por otro lado, para poder solucionar la problemática de la diferencias de los resultados entre estudios que comparan al grupo con SD con grupos de etiología mixta y cuando el grupo de comparación tiene autismo, se recomienda que para futuras investigaciones se utilicen múltiples grupos de comparación de diferentes etiologías. Igualmente, se plantea para futuras investigaciones incluir comparaciones en la variable calidad de vida familiar en función al género. De esta manera, se podría determinar hasta qué punto las familias que tienen un hijo varón frente a las que tienen una hija, pueden estar recibiendo más apoyos y servicios por parte de la comunidad.

Tras la presente investigación, se ve necesario un análisis más complejo de la ventaja del síndrome de Down, resaltando la importancia de la autoevaluación en este tipo de estudios. Uno de los objetivos generales que se plantean de cara al trabajo con estas personas es aumentar su calidad de vida. Por tanto, un estudio más en profundidad permitirá estar en mejores condiciones de apoyar a familias con niños con diferentes tipos discapacidad intelectual, familias con hijos adultos o del género femenino que puedan experimentar más desafíos de crianza.

Referencias

- Abbeduto, L., Seltzer, M. M., Shattuck, P., Krauss, M. W., Orsmond, G. y Murphy, M. M. (2004). Psychological well-being and coping in mothers of youths with autism, down syndrome, or fragile X syndrome. *Journal Information*, 109(3), 237-254.
- Acharya, K. (2011). Prenatal testing for intellectual disability: Misperceptions and reality with lessons from Down syndrome. *Developmental Disabilities Research Reviews*, 17(1), 27-31.

- Bertoli, M., Biasini, G., Calignano, M. T., Celani, G., De Grossi, G., Digilio, M. C. y Zuccalà, G. (2011). Needs and challenges of daily life for people with Down syndrome residing in the city of Rome, Italy. *Journal of Intellectual Disability Research*, 55(8), 801-820.
- Blacher, J. y McIntyre, L. L. (2006). Syndrome specificity and behavioural disorders in young adults with intellectual disability: Cultural differences in family impact. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(3), 184-198.
- Blacher, J., Baker, B. L. y Kaladjian, A. (2013). Syndrome specificity and mother-child interactions: Examining positive and negative parenting across contexts and time. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 43(4), 761-774.
- Boström, P. K., Broberg, M. y Bodin, L. (2011). Child's positive and negative impacts on parents. A person-oriented approach to understanding temperament in preschool children with intellectual disabilities. *Research in Developmental Disabilities*, 32(5), 1860-1871.
- Brown, I. y Brown, R. I. (2003). *Quality of Life and Disability: An Approach for Community Practitioners*. London: Jessica Kingsley Publishers.
- Brown, R. I., MacAdam-Crisp, J., Wang, M. y Iarocci, G. (2006). Family quality of life when there is a child with a developmental disability. *Journal of Policy and Practice in Intellectual Disabilities*, 3(4), 238-245.
- Buzatto, L. L. y Beresin, R. (2008). Quality of life of parents with Down syndrome children. *Einstein*, 6(2), 175-181.
- Cahill, B. M. y Glidden, L. M. (1996). Influence of child diagnosis on family and parental functioning: Down syndrome versus other disabilities. *American Journal of Mental Retardation*, 101(2), 149-160.
- Canelo, J. A. M., Sardón, M. A., de las Hazas, A. S. L. y González, M. D. C. S. (2008). Calidad de vida relacionada con la salud en personas con discapacidad intelectual en España. *Revista Panamericana de Salud Pública*, 24(5), 336-344.
- Carr, J. (2008). The everyday life of adults with Down syndrome. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 21(5), 389-397.
- Córdoba-Andrade, L., Gómez-Benito, J. y Verdugo-Alonso, M. (2008). Calidad de vida familiar en personas con discapacidad: un análisis comparativo. *Universitas Psychologica*, 7(2), 369-383.
- Corrice, A. M. y Glidden, L. M. (2009). The Down syndrome advantage: Fact or fiction? *Journal Information*, 114(4), 254-268.

- Cummins, R. A. (1997). Assessing quality of life for people with disabilities. En R. I. Brown (Ed.), *Quality of life for people with disabilities: models, researchs and practice*, 2nd ed., 116-150. Cheltenham, England: Stanley Thornes.
- Cummins, R. A. (2002). The validity and utility of subjective quality of life: a reply to Hatton & Ager. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 15(3), 261-268.
- Curran, P. J., West, S. G. y Finch, J. F. (1996). The robustness of test statistics to nonnormality and specification error in confirmatory factor analysis. *Psychological Methods*, 1(1), 16.
- Cuskelly, M. y Gunn, P. (2006). Adjustment of children who have a sibling with Down syndrome: Perspectives of mothers, fathers and children. *Journal of Intellectual Disability Research*, 50(12), 917-925.
- Cuskelly, M., Grace, R. y Hayden, A. (2009). Disability: Characteristics, contexts and consequences. En J. M. Bowes and R. Grace (Ed.), *Children, families and communities: Contexts and consequences*, 3rd ed (pp. 143-166). Melbourne: Oxford University Press.
- Dabrowska, A. y Pisula, E. (2010). Parenting stress and coping styles in mothers and fathers of pre-school children with autism and Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 54(3), 266-280.
- Davis, K. y Gavidia-Payne, S. (2009). The impact of child, family, and professional support characteristics on the quality of life in families of young children with disabilities. *Journal of Intellectual and Developmental Disability*, 34(2), 153-162.
- Didden, R., Sigafos, J., Green, V. A., Korzilius, H., Mouws, C., Lancioni, G. E. y Curfs, L. G. (2008). Behavioural flexibility in individuals with Angelman syndrome, Down syndrome, non-specific intellectual disability and Autism spectrum disorder. *Journal of Intellectual Disability Research*, 52(6), 503-509.
- Dodd, D. H., Zabriskie, R. B., Widmer, M. A. y Eggett, D. (2009). Contributions of family leisure to family functioning among families that include children with developmental disabilities. *Journal of Leisure Research* 41(2), 261-286.
- Dykens, E. M. (2000). Annotation: Psychopathology in children with intellectual disability. *Journal of Child Psychology and Psychiatry*, 41(4), 407-417.
- Dykens, E. M. (2003) The Williams syndrome behavioral phenotype: the 'whole person' is missing. *Current Opinionin Psychiatry* 16(5), 523-528.

- Dykens, E. M., Hodapp, R. M. y Finucane, B. M. (2000). *Genetics and mental retardation syndromes: A new look at behavior and interventions*. Baltimore, MD: Paul H. Brookes Publishing.
- Dykens, E. M. y Kasari, C. (1997). Maladaptive behavior in children with Prader-Willi syndrome, Down syndrome, and nonspecific mental retardation. *American Journal on Mental Retardation*, 102(3), 228-237.
- Dykens, E. M., Shah, B., Sagun, J., Beck, T. y King, B. H. (2002). Maladaptive behaviour in children and adolescents with Down's syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research*, 46(6), 484-492.
- Eisenhower, A. S., Baker, B. L. y Blacher, J. (2005). Preschool children with intellectual disability: syndrome specificity, behaviour problems, and maternal well-being. *Journal of Intellectual Disability Research*, 49(9), 657-671.
- Esbensen, A. J., Bishop, S., Seltzer, M. M., Greenberg, J. S. y Taylor, J. L. (2010). Comparisons between individuals with autism spectrum disorders and individuals with Down syndrome in adulthood. *Journal Information*, 115(4), 277-290.
- Esbensen, A. J. y Seltzer, M. M. (2011). Accounting for the "Down syndrome advantage". *American Journal of Intellectual and Developmental Disabilities*, 116(1), 3-15.
- Fidler, D. J., Hodapp, R. M. y Dykens, E. M. (2000). Stress in families of young children with Down syndrome, Williams syndrome, and Smith-Magenis syndrome. *Early Education and Development*, 11(4), 395-406.
- Fidler, D. J., Most, D. E. y Philofsky, A. D. (2009). The Down syndrome behavioural phenotype: Taking a developmental approach. *Down Syndrome Research and Practice*, 12(3), 188-195.
- Fisman, S., Wolf, L., Ellison, D. y Freeman, T. (2000). A longitudinal study of siblings of children with chronic disabilities. *The Canadian Journal of Psychiatry*, 45(4), 369-375.
- Foley, K. R., Girdler, S., Downs, J., Jacoby, P., Bourke, J., Lennox, N. y Leonard, H. (2014). Relationship between family quality of life and day occupations of young people with Down syndrome. *Social Psychiatry and Psychiatric Epidemiology*, 49(9), 1455-1465.
- Folkman, S. y Moskowitz, J. T. (2000). Positive affect and the other side of coping. *American Psychologist*, 55(6), 647-654.
- Geok, C. K., Abdullah, K. L. y Kee, L. H. (2013). Quality of life among Malaysian mothers with a child with Down syndrome. *International Journal of Nursing Practice*, 19(4), 381-389.

- Griffith, G. M., Hastings, R. P., Nash, S. y Hill, C. (2010). Using matched groups to explore child behavior problems and maternal well-being in children with Down syndrome and autism. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 40(5), 610-619.
- Glidden, L. M. y Cahill, B. M. (1998). Successful adoption of children with Down syndrome and other developmental disabilities. *Adoption Quarterly*, 1(3), 27-43.
- Glidden, L. M., Grein, K. A. y Ludwig, J. A. (2014). The Down syndrome advantage: it depends on what and when you measure. *American Journal on Intellectual and Developmental Disabilities*, 119(5), 389-404.
- Hartley, S. L., Seltzer, M. M., Head, L. y Abbeduto, L. (2012). Psychological well-being in fathers of adolescents and young adults with Down syndrome, Fragile X syndrome, and Autism. *Family Relations*, 61(2), 327-342.
- Hastings, R.P., Beck, A. y Hill, C. (2005). Positive contributions made by children with a learning disability in the family. *Journal of Intellectual Disabilities*, 9(2), 155-165.
- Hatton, C. y Ager, A. (2002). Quality of life measurement and people with intellectual disabilities: a reply to Cummins. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 15(3), 254-260.
- Hauser-Cram, P., Warfield, M. E., Shonkoff, J. P., Krauss, M. W., Sayer, A., Upshur, C. C. y Hodapp, R. M. (2001). Children with disabilities: A longitudinal study of child development and parent well-being. *Monographs of the Society for Research in Child Development*, 66(3) 1-126.
- Hodapp, R. M. (2007). Families of persons with Down syndrome: New perspectives, findings, and research and service needs. *Mental Retardation and Developmental Disabilities Research Reviews*, 13(3), 279-287.
- Hodapp, R. M., Burke, M. M. y Urbano, R. C. (2012). What's age got to do with it? Implications of maternal age on families of offspring with Down syndrome. *International Review of Research in Developmental Disabilities*, 42, 109-145.
- Hodapp, R. M. y Dykens, E. M. (1994). Mental retardation's two cultures of behavioral research. *American Journal on Mental Retardation*, 98(6), 675-687.
- Hodapp, R. M., Ly, T. M., Fidler, D. J. y Ricci, L. A. (2001). Less stress, more rewarding: Parenting children with Down syndrome. *Parenting: Science and Practice*, 1(4), 317-337.
- Hodapp, R. M., Ricci, L. A., Ly, T. M. y Fidler, D. J. (2003). The effects of the child with Down syndrome on maternal stress. *British Journal of Developmental Psychology*, 21(1), 137-151.

- Hodapp, R. M. y Urbano, R. C. (2007). Adult siblings of individuals with Down syndrome versus with autism: findings from a large-scale US survey. *Journal of Intellectual Disability Research, 51*(12), 1018-1029.
- Howlin, P. (2005). Outcomes in autism spectrum disorders. En F. R. Volkmar, R. Paul, A. Klin, y D. Cohen (Eds.), *Handbook of autism and pervasive developmental disorders, vol. 1: Diagnosis, development, neurobiology, and behavior* (3rd ed., pp. 201-220). Hoboken, NJ: Wiley.
- Kasari, C. y Freeman, S. F. (2001). Task-related social behavior in children with Down syndrome. *Journal Information, 106*(3), 253-264.
- Kasari, C., Mundy, P., Yirmiya, N. y Sigman, M. (1990). Affect and attention in children with Down syndrome. *American Journal on Mental Retardation, 95*(1), 55-67.
- Lawson, K. L. (2006). Expectations of the parenting experience and willingness to consider selective termination for Down syndrome. *Journal of Reproductive and Infant Psychology, 24*(1), 43-59.
- Lewis, P., Abbeduto, L., Murphy, M., Richmond, E., Giles, N., Bruno, L. y Orsmond, G. (2006). Psychological well-being of mothers of youth with fragile X syndrome: syndrome specificity and within-syndrome variability. *Journal of Intellectual Disability Research, 50*(12), 894-904.
- Lunsky, Y. y Bramston, P. (2006). A preliminary study of perceived stress in adults with intellectual disabilities according to self-report and informant ratings. *Journal of Intellectual and Developmental Disability, 31*(1), 20-27.
- Mileviciute, I. y Hartley, S. L. (2015). Self-reported versus informant-reported depressive symptoms in adults with mild intellectual disability. *Journal of Intellectual Disability Research, 59*(2), 158-169.
- Mitchell, D. B. y Hauser-Cram, P. (2010). Early childhood predictors of mothers' and fathers' relationships with adolescents with developmental disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research, 54*(6), 487-500.
- Most, D. E., Fidler, D. J., Laforce-Booth, C. y Kelly, J. (2006). Stress trajectories in mothers of young children with Down syndrome. *Journal of Intellectual Disability Research, 50*(7), 501-514.
- Myers, B. A. y Pueschel, S. M. (1991). Psychiatric disorders in persons with Down syndrome. *The Journal of Nervous and Mental Disease, 179*(10), 609-613.

- National Association for Down Syndrome (NADS). (2010). Down syndrome facts. Recuperado de: http://www.nads.org/pages_new/facts.html
- O'Brien, G. y Yule, W. (1995). Methodological issues in behavioural phenotypes research. *Clinics in Developmental Medicine*, (138), 35-44.
- Orsmond, G. I. y Seltzer, M. M. (2007). Siblings of individuals with autism or Down syndrome: Effects on adult lives. *Journal of Intellectual Disability Research*, 51(9), 682-696.
- Park, J., Turnbull, A. P. y Turnbull, H. R. (2002). Impacts of poverty on quality of life in families of children with disabilities. *Exceptional Children*, 68(2), 151-170.
- Phillips, B. A. (2014). *A comparison of parenting dimensions between mothers of children with Down syndrome and mothers of typically developing children* (Tesis de doctorado), The University of Alabama, TUSCALOOSA.
- Pisula, E. (2007). A comparative study of stress profiles in mothers of children with autism and those of children with Down's syndrome. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 20(3), 274-278.
- Poehlmann, J., Clements, M., Abbeduto, L. y Farsad, V. (2005). Family experiences associated with a child's diagnosis of fragile X or Down syndrome: Evidence for disruption and resilience. *Mental Retardation*, 43(4), 255-267.
- Povee, K., Roberts, L., Bourke, J. y Leonard, H. (2012). Family functioning in families with a child with Down syndrome: a mixed methods approach. *Journal of Intellectual Disability Research*, 56(10), 961-973.
- Ricci, L. A. y Hodapp, R. M. (2003). Fathers of children with Down's syndrome versus other types of intellectual disability: perceptions, stress and involvement. *Journal of Intellectual Disability Research*, 47(4-5), 273-284.
- Rodgers, C. (1987). Maternal support for the Down's syndrome stereotype: The effect of direct experience of the condition. *Journal of Intellectual Disability Research*, 31(3), 271-278.
- Rodrigue, J. R., Morgan, S. B. y Geffken, G. (1990). Families of autistic children: Psychological functioning of mothers. *Journal of Clinical Child Psychology*, 19(4), 371-379.
- Rosner, B. A., Hodapp, R. M., Fidler, D. J., Sagun, J. N. y Dykens, E. M. (2004). Social competence in persons with Prader-Willi, Williams and Down's syndromes. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 17(3), 209-217.

- Sanders, J. L. y Morgan, S. B. (1997). Family stress and adjustment as perceived by parents of children with autism or Down syndrome: Implications for intervention. *Child & Family Behavior Therapy*, 19(4), 15-32.
- Sellinger, M. H. y Hodapp, R. M. (2005). Effets indirects des syndromes génétiques: les réactions parentales aux phénotypes comportementaux. *Enfance*, 57(3), 218-226.
- Seltzer, M. M., Krauss, M. W. y Tsunematsu, N. (1993). Adults with Down syndrome and their aging mothers: diagnostic group differences. *American Journal on Mental Retardation* 97(5), 496-508.
- Seltzer, M. M. y Ryff, C. D. (1994). Parenting across the life span: The normative and nonnormative cases. *Life-span Development and Behavior*, 12, 1-40.
- Schalock, R. L., Keith, K. D., Verdugo, M. A. y Gómez, L. E. (2010). Quality of life model development in the field of intellectual disability. En R. Kober, *Quality of life for people with intellectual disability* (pp. 17-32). Nueva York: Springer.
- Schalock, R. L. y Verdugo, M. (2002). *The concept of quality of life in human services: A handbook for human service practitioners*. Washington, DC: American Association on Mental Retardation.
- Schalock, R. L. y Verdugo, M. A. (2007). El concepto de calidad de vida en los servicios y apoyos para personas con discapacidad intelectual. *Siglo Cero*, 38, 21-36.
- Shonkoff, J. P., Hauser-Cram, P., Krauss, M. W., Upshur, C. C. y Sameroff, A. J. (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), 1-163.
- Skotko, B. G., Levine, S. P. y Goldstein, R. (2011a). Having a son or daughter with Down syndrome: Perspectives from mothers and fathers. *American Journal of Medical Genetics Part A*, 155(10), 2335-2347.
- Skotko, B. G., Levine, S. P. y Goldstein, R. (2011b). Self-perceptions from people with Down syndrome. *American Journal of Medical Genetics Part A*, 155(10), 2360-2369.
- Skotko, B. G., Levine, S. P. y Goldstein, R. (2011c). Having a brother or sister with Down syndrome: Perspectives from siblings. *American Journal of Medical Genetics Part A*, 155(10), 2348-2359.

- Smith, A. L., Ronski, M., Sevcik, R. A., Adamson, L. B. y Barker, R. M. (2014). Parent Stress and Perceptions of Language Development: Comparing Down Syndrome and Other Developmental Disabilities. *Family Relations*, 63(1), 71-84.
- Speller, C. (1996). A consumer satisfaction survey: effects on a community team and on service provision. *British Journal of Developmental Disabilities*, 42(82), 80-84.
- Stancliffe, R. J. (1999). Proxy respondents and the reliability of the Quality of Life Questionnaire Empowerment factor. *Journal of Intellectual Disability Research*, 43(3), 185-193.
- Stoneman, Z. (2007). Examining the Down syndrome advantage: Mothers and fathers of young children with disabilities. *Journal of Intellectual Disability Research*, 51(12), 1006-1017.
- Taylor, J. L. y Seltzer, M. M. (2011). Changes in the mother-child relationship during the transition to adulthood for youth with autism spectrum disorders. *Journal of Autism and Developmental Disorders*, 41(10), 1397-1410.
- Tekinarslan, I. C. (2013). A comparison study of depression and quality of life in turkish mothers of children with down syndrome, cerebral palsy, and autism spectrum disorder. *Psychological Reports*, 112(1), 266-287.
- Urbano, R. C. y Hodapp, R. M. (2007). Divorce in families of children with Down syndrome: A population-based study. *American Journal on Mental Retardation*, 112(4), 261-274.
- Van Gameren-Oosterom, H. M., Fekkes, M., Buitendijk, S. E., Mohangoo, A. D., Bruil, J., y Wouwe, J. V. (2011). Development, Problem Behavior, and Quality of Life in a Population Based Sample of Eight-Year-Old Children with Down Syndrome. *PLOS ONE*, 6(7), 1-8.
- Verdugo, M. A. (2006). *Cómo mejorar la calidad de vida de las personas con discapacidad*. Salamanca: Amarú.
- Verdugo, M.A., Rodríguez, A. y Sainz, F. (2009). *Escala de Calidad de Vida Familiar*. Salamanca: INICO.
- Verdugo, M. A., Gómez, L. E., Arias, B., Santamaría, M., Clavero, D. y Tamarit, J. (2013). Escala INICO-FEAPS: Evaluación Integral de la Calidad de Vida de Personas con Discapacidad Intelectual o del Desarrollo. *Salamanca: Publicaciones INICO, Colección Herramientas*, 7.
- Walden, S., Pistrang, N. y Joyce, T. (2000). Parents of adults with intellectual disabilities: quality of life and experiences of caring. *Journal of Applied Research in Intellectual Disabilities*, 13(2), 62-76.

Wiley, R. y Renk, K. (2007). Psychological correlates of quality of life in children with cerebral palsy. *Journal of Developmental and Physical Disabilities*, 19(5), 427-447.

World Health Organization. (2012). Genes and human disease: Down syndrome. Recuperado de <http://www.who.int/genomics/public/geneticdiseases/en/index1.html>

Zigman, W. B., Schupf, N., Urv, T. K. y Silverman, W. (2009). Adaptive behavior change and dementia in Down syndrome: case classification using the Adaptive Behavior Scale. En: *Neuropsychological Assessments of Dementia in Down Syndrome and Intellectual Disabilities*. Springer London, 90-105.