Plan Overview

A Data Management Plan created using DMP Tool

DMP ID: https://doi.org/10.48321/D1930S

Title: Qualidade de vida de famílias e indivíduos que têm Síndrome de Rett no Brasil (Quality of life of families and individuals with Rett Syndrome in Brazil)

Creator: Debora Gusmão Melo - **ORCID:** 0000-0001-7005-3544

Affiliation: Universidade Federal de São Carlos (ufscar.br)

Principal Investigator: Nicoly Stefani Sevalho Carlucci, Débora Gusmão Melo

Data Manager: Nicoly Stefani Sevalho Carlucci, Débora Gusmão Melo

Project Administrator: Débora Gusmão Melo

Funder: São Paulo Research Foundation (fapesp.br)

Funding opportunity number: 20/09415-2

Grant: https://bv.fapesp.br/pt/bolsas/193865/qualidade-de-vida-de-familias-e-individuos-que-tem-sindrome-de-rett-no-brasil/

Template: Digital Curation Centre (português)

Project abstract:

Rett syndrome (RTT) is a rare genetic neurodevelopmental disease, with an estimated global incidence of 1: 10,000 to15,000 live births in the female sex. Clinically, it is characterized by normal development until 6 to 18 months that is followed by a period of developmental delay, subsequent rapid regression, a pseudo-stationary period, and slow deterioration. People with RTT will require specific care that will demand family support.

In this study, we sought to assess the family quality of life (FQoL) of Brazilian families who have children with RTT, as well as to analyze some dimensions of the health-related quality of life (HRQoL) of people with RTT. Additionally, we sought to assess the correlation of FQoL with sociodemographic variables and the clinical and individual characteristics of people with RTT.

This is a quantitative, cross-sectional, descriptive research developed with the formal support of the “Associação Brasileira de Síndrome de Rett” (ABRE-TE). All 400 families linked to ABRE-TE with children between the ages of 2 and 25 were invited to participate. Data was collected by completing four questionnaires: the “profile of the person with RTT” form, the “family sociodemographic profile” form, the Pediatric Quality of Life Inventory (PedsQL), and the Beach Center Family Quality of Life Scale (BCFQoLS). The PedsQL questionnaire assesses the quality of life linked to the health of children and adolescents and has 21 to 23 items that cover four dimensions: (1) physical, (2) emotional, (3) social, and (4) school. The social and school dimensions were not investigated in this study due to the characteristics of the sample and also because of the Covid-19 pandemic, which led to social isolation and suspension from school activities. Thus, only the physical and emotional dimensions of the PedsQL were considered. The BCFQoLS is a specific scale to assess the quality of life for families that have a member with a disability and consists of 25 items, divided into five domains: (1) parental care for children, (2) family interaction, (3) emotional well-being, (4) physical/material well-being, and (5) disability-related support.

Ultimately, we intend that this study serves as a subsidy for building a comprehensive care line for patients with rare genetic diseases, such as RTT, in accordance with the National Policy for Comprehensive Care for People with Rare Diseases in the Brazilian Unified Health System.

Start date: 11-01-2020

End date: 12-31-2022

Last modified: 07-08-2024

Copyright information:

The above plan creator(s) have agreed that others may use as much of the text of this plan as they would like in their own plans, and customize it as necessary. You do not need to credit the creator(s) as the source of the language used, but using any of the plan's text does not imply that the creator(s) endorse, or have any relationship to, your project or proposal

Qualidade de vida de famílias e indivíduos que têm Síndrome de Rett no Brasil (Quality of life of families and individuals with Rett Syndrome in Brazil)

Coleta de Dados

Que dados serão coletados ou criados?

Foram coletados dados sobre o perfil sociodemográfico familiar, por meio de um formulário desenvolvido especificamente para essa pesquisa com informações sobre a cidade de residência da família, renda familiar, recebimento de benefício social, acesso à saúde suplementar, religião, número de pessoas que coabitam na residência, estado marital, idade, escolaridade, profissão dos pais e idade dos irmãos das pessoas com síndrome de Rett. Adicionalmente, coletou-se dados sobre a pessoa com síndrome de Rett, por meio de um formulário construído somente para essa pesquisa que incluiu informações sobre sexo, idade e escolaridade, além de características clínicas.

Foram coletados dados sobre a Qualidade de Vida Relacionada a Saúde (QVRS) das pessoas com síndrome de Rett através do Inventário Pediátrico de Qualidade de Vida (*Pediatric Quality of Life Inventory* 4.0, PedsQL). O PedsQL 4.0 é uma escala composta por 21 a 23 itens, dividido em quatro dimensões: (1) dimensão física, (2) dimensão emocional, (3) dimensão social e (4) dimensão escolar. Devido a dificuldade de comunicação presente na síndrome, foi utilizada a versão *parente-proxy report*, onde os pais respondem pelos filhos. Por causa da pandemia de Covid-19, que restringiu os contatos sociais presenciais, não foram consideradas informações sobre as dimensões social e escolar.

Foram coletados dados sobre a Qualidade de Vida Familiar (QVF) por meio da Escala de Qualidade de Vida Familiar do Beach Center (*Beach Center Family Quality of Life Scale*, BCFQoLS). A BCFQoLS é uma escala específica para avaliar qualidade de vida de famílias que têm um membro com deficiência e é composta por 25 itens, separados em cinco domínios: (1) cuidados dos pais com os filhos, (2) interação familiar, (3) bem-estar emocional, (4) bem-estar físico e material e (5) apoio ao deficiente.

Como os dados serão coletados ou criados?

Os dados foram coletados por meio de formulários autoaplicáveis disponíveis em plataformas na Internet. Na maioria dos casos a mãe foi a informante.

Documentação e Metadados

Que documentação e metadados acompanharão os dados?

Os dados coletados serão tabulados e armazenados em planilhas no formato .xlsx que podem ser lidas no MS Office Excel, LibreOffice Calc e outros leitores de planilhas.

Ética e Conformidade Legal

Como você administrará qualquer questão ética?

Esta pesquisa foi aprovada pelo Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos da UFSCar (CAAE 34586620.5.0000.5504). Todos os participantes assinaram o Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.

Como você vai gerenciar os direitos autorais e os direitos de propriedade intelectual (IP / IPR)?

Todos os formulários de coleta de dados elaborados especificamente para essa pesquisa serão publicados no repositório Figshare (https://figshare.com/) quando os resultados da pesquisa forem divulgados e os artigos científicos submetidos à publicação.

Os dados brutos da pesquisa serão gerenciados apenas pelas pesquisadoras responsáveis, as quais podem permitir o compartilhamento e uso dos dados por terceiros. Inicialmente, os dados serão disponibilizados somente para consulta; não podendo ser utilizados para produção de trabalhos científicos. Todavia, futuramente, parcerias de pesquisa poderão ser estabelecidas por meio de convênio técnico e científico para a utilização dos dados para produção científica multicêntrica.

Ressaltamos que não serão compartilhadas quaisquer informações sensíveis que possibilitem a identificação das famílias participantes da pesquisa.

Armazenamento e Backup

Como os dados serão armazenados e terão backup durante a pesquisa?

Os bancos de dados serão armazenados em formato.xlsx e salvos na conta institucional da pesquisadora principal, por meio da nuvem via "Google Drive". Além disso, será feito backup dos bancos de dados em dois computadores das pesquisadoras responsáveis e em discos rígidos externos.

Como você vai gerenciar o acesso e a segurança?

O acesso aos bancos de dados será feito utilizando uma senha de acesso aos arquivos e computadores das pesquisadoras, responsáveis pela gestão dos dados. Todas as informações que possam permitir a identificação das famílias participantes não serão compartilhadas. Futuramente, caso os dados sejam compartilhados, serão anonimizados.

Seleção e Preservação

Quais dados são de valor a longo prazo e devem ser mantidos, compartilhados e / ou preservados?

Os dados serão armazenados durante, pelo menos, dez anos no “Google Drive”, computadores pessoais e discos rígidos externos. Os dados poderão ser compartilhados, mediante solicitação feita às pesquisadoras responsáveis.

Os dados serão compartilhados apenas após o trabalho oriundo desta pesquisa ser aceito para publicação ou publicado.

Todos os dados brutos que possibilitem que as pessoas com síndrome de Rett ou suas famílias sejam identificadas nunca serão divulgados.

Qual é o plano de preservação a longo prazo do conjunto de dados?

Além dos dados serem preservados no “Google Drive”, nos computadores das pesquisadoras e nos discos rígidos por, pelo menos, dez anos, as informações e resultados obtidos através das análises dos dados serão compilados em forma de relatórios, artigos e disponibilizados para acesso público, especialmente por meio de publicações em periódicos acadêmicos.

Compartilhamento de Dados

Como você vai compartilhar os dados?

Os resultados desta pesquisa servirão como base para elaboração de artigos de pesquisa para submissão em periódicos. Adicionalmente, os resultados serão apresentação em eventos científicos nacionais e internacionais.

Os formulários elaborados especialmente para esta pesquisa serão depositados no repositório Figshare (https://figshare.com/) no momento que os resultados da pesquisa forem divulgados.

Após a publicação dos resultados da pesquisa, poderá ser concedido acesso aos dados desde que feita solicitação formal as pesquisadoras responsáveis, omitindo informações sensíveis, que possibilitem identificar as famílias participantes da pesquisa. Os dados compartilhados poderão ser utilizados por meio de acordo de colaboração de pesquisa ou por citação referenciada.

Existem restrições ao compartilhamento de dados requeridos?

Há restrições para o compartilhamento de dados primários. Todas as informações sensíveis, que permitam a identificação das famílias participantes da pesquisa não serão compartilhadas. E, se houver compartilhamento de dados, eles serão anonimizados.

Responsabilidades e Recursos

Quem será responsável pelo gerenciamento de dados?

Os dados foram coletados por uma estudante de iniciação científica.

A produção de metadados foi supervisionada pela pesquisadora responsável.

Todo armazenamento, arquivamento e compartilhamento de dados é de responsabilidade das pesquisadoras principais.

Quais recursos você precisará para entregar seu plano?

Para que os planos sejam efetivamente cumpridos, é necessária a estrutura física do Departamento de Medicina da UFSCar e a preservação da “nuvem” no Google drive, via plataforma G Suite do Google,

por meio da conta institucional concedida pela UFSCar.

O suporte financeiro para o desenvolvimento da pesquisa foi fornecido pela Fapesp por meio do processo 20/09415-2.