

Evaluación de la calidad de vida en personas con discapacidad intelectual

¿Un asunto ético o metodológico?

Quality of life assessment in people with intellectual disability

An ethical or methodological issue?

ELIANA-ISABEL RODRÍGUEZ-GRANDE • BOGOTÁ, D.C. (COLOMBIA)
MARÍA XIMENA ROJAS-REYES • BARCELONA (ESPAÑA)

DOI: <https://doi.org/10.36104/amc.2022.2019>

Resumen

La calidad de vida relacionada con la salud se ha convertido en la actualidad en uno de los desenlaces que se proponen para evaluar la efectividad de intervenciones terapéuticas, sobre todo en condiciones que no tienen cura médica y en las cuales se espera que las intervenciones en salud impacten la forma en la que viven las personas. En el caso de las personas con discapacidad intelectual hay controversia no sólo por la evaluación de la calidad de vida como desenlace, sino también por las consideraciones éticas y metodológicas que implica su uso. Este ensayo aborda los temas éticos y metodológicos de la inclusión de la calidad de vida relacionada con la salud como desenlace clínico en personas con discapacidad intelectual. (*Acta Med Colomb 2022; 47*. DOI: <https://doi.org/10.36104/amc.2022.2019>).

Palabras clave: *discapacidad intelectual, calidad de vida relacionada con la salud, efectividad, desenlaces centrados en el paciente.*

Abstract

Health-related quality of life is one of the outcomes proposed today for assessing the effectiveness of therapeutic interventions, especially in conditions with no medical cure and in which it is expected that the healthcare interventions will have an impact on the way people live. In the case of people with intellectual disability, there is controversy not only about the assessment of quality of life as an outcome, but also over the ethical and methodological considerations involved in its use. This paper addresses the ethical and methodological issues of including health-related quality of life as a clinical outcome in people with intellectual disability. (*Acta Med Colomb 2022; 47*. DOI: <https://doi.org/10.36104/amc.2022.2019>).

Key words: *intellectual disability, health-related quality of life, effectiveness, patient-centered outcomes.*

Dra. Eliana-Isabel Rodríguez-Grande: Profesor Carrera Académica Universidad del Rosario, Escuela de Medicina y Ciencias de la Salud, GI Ciencias de la Rehabilitación, Programa de Doctorado en Epidemiología Clínica, Departamento de Epidemiología Clínica y Bioestadística, Pontificia Universidad Javeriana (PhD cand.). Bogotá, D.C. (Colombia); Dra. María Ximena Rojas-Reyes: MSc en Epidemiología Clínica, PhD en Salud Pública y Metodología de la Investigación Biomédica. Investigador Asociado, Departamento de Investigaciones, Fundación CardioInfantil, Bogotá, D.C. (Colombia). Investigadora, Institut d'Recerca Hospital de la Santa Creu i Sant Pau (IIB-Sant Pau). Barcelona (España).

Correspondencia: Dra. Eliana-Isabel Rodríguez-Grande. Bogotá, D.C.

E-Mail: eliana.rodriguez@urosario.edu.co

Recibido: 20/IX/2020 Aceptado: 9/VI/2021

Introducción

La evaluación de la Calidad de Vida Relacionada con la Salud (CVRS) ha recibido atención considerable desde los años ochenta. En la discusión se han generado algunos puntos controversiales, entre los que se cuentan, primero, la importancia de la CVRS como desenlace de intervenciones terapéuticas en personas con discapacidad intelectual (DI), y segundo, si la evaluación de la CVRS debe hacerse desde la perspectiva de las personas con esta condición o desde la perspectiva del cuidador (1). Este ensayo apoya la evaluación de la CVRS como des-

enlace de las intervenciones terapéuticas en salud desde la perspectiva de las personas con DI. Para defender esta postura se abordan ambas controversias desde los puntos de vista ético y metodológico.

Sin duda alguna, la CVRS es uno de los principales fines de la medicina actual y de las políticas públicas de salud, además, existe interés creciente en la comunidad científica sobre el tema, dado que anualmente se publican en revistas médicas más de 2.000 artículos relacionados con la CVRS (1, 2). Pero ¿de dónde viene el término de Calidad de Vida (CV) aplicado a las ciencias de la salud?

El constructo de CV ha sido comúnmente asociado con un término clínico, pero es realmente un concepto filosófico y ético, relacionado con el bien, la caridad, la hermandad y la felicidad, entre otras. El bien es un principio aristotélico que debería ser desencadenado por todas las acciones humanas. Cuando nos decimos profesionales de la salud, propendemos por el bien de los usuarios de los servicios que prestamos, además, nos ceñimos al principio ético de beneficencia en todas nuestras acciones, sería entonces desde la ética de Aristóteles, el conjunto de acciones que buscan en la práctica clínica el bien y la felicidad humana. Por esto, las intervenciones en la clínica y en investigación en la población con DI configuran un conjunto de acciones –en muchos casos institucionales– necesarias para salvaguardar el buen vivir de estas personas; el concepto de CV está íntimamente ligado con el objetivo final de las intervenciones en salud (3).

El bien que buscamos los profesionales de la salud en nuestros pacientes debe incluir, primero, la intención de hacer el bien, y segundo, algo bueno debe ser buscado por quien recibe la acción, en este caso el paciente con DI debe entender cuál es el bien que el profesional de la salud quiere brindarle y, además, estar de acuerdo con aceptar el bien que viene de las intervenciones del profesional; de lo contrario, lo bueno sería incomprendible. No habría otra manera de saber si el usuario entiende y desea recibir las intervenciones que preguntándose.

Dado lo anterior, y si se pretende implementar acciones en salud para mejorar la CVRS de los pacientes con DI, ellos deben estar enterados y de acuerdo con recibir dichas intervenciones. Además, si como profesionales propendemos por el bien de los pacientes, y el bien está ligado al buen vivir y, por ende a la calidad de vida, es necesario evaluar las condiciones iniciales sobre las que nuestras acciones pretenden impactar, más aún cuando nuestras decisiones están movidas por la objetividad. Todas las acciones que buscan el bien deben generar cambio en esa condición inicial, por lo cual la evaluación de la CVRS directamente en los pacientes con DI se configura como una medida del efecto esperado de nuestras intervenciones en salud (3).

Investigadores positivistas en salud, representantes a ultranza del modelo biomédico, sostienen que efectivamente, la medicina ha impactado la CV de las personas a través de los resultados objetivos derivados de la investigación científica rigurosa, como prueba de ello se mencionan las vacunas y tratamientos farmacológicos complejos que pueden salvar la vida de los pacientes. Ese precisamente sería el aporte de los investigadores y de la medicina a la CV de las personas. Pero la evaluación de la CVRS como desenlace en salud aborda sutilezas y complejidades de la vida de las personas que no pueden ser abordadas con esa objetividad que persigue el paradigma positivista (4).

Es necesario tener claro que la aplicación a veces indiscriminada de nuevas tecnologías en salud, con capacidad de prolongar la vida a cualquier precio, la complicada decisión de cantidad versus calidad de la vida, y el dilema ético de

la distribución de los recursos económicos entre las poblaciones con diferentes afecciones de salud, han desconocido históricamente las opiniones de los pacientes, algo que el constructo CVRS incorpora, por lo que se ha clasificado como un desenlace “centrado en el paciente” (PROM de sus siglas en inglés) (5). Como medida de desenlace, la CVRS no sólo busca establecer la preferencia del paciente sobre su condición de salud, sino también sobre el impacto que tienen los tratamientos en otros aspectos de su vida.

Es cada vez más reconocido que la toma de decisiones en el sector salud debe tener en cuenta la percepción de los usuarios, sin perder de vista la objetividad. Esta percepción debería estar apoyada en una profunda evidencia empírica de base científica, que considere, además de los indicadores clásicos cuantitativos de morbimortalidad y los costos, indicadores cualitativos que expresen el impacto sobre la calidad de vida y la satisfacción del paciente. El modelo biomédico tradicional excluye el hecho de que, en la mayoría de las enfermedades, el estado de salud está profundamente influido por el estado de ánimo, la capacidad de hacer las actividades de la vida diaria por sí mismo y el soporte social, entre otras. Es evidente que estos aspectos de máxima importancia en la vida de los seres humanos serán los que más influyan en su estado de salud y por ende deberían ser tenidos en cuenta a la hora de la evaluación clínica de los pacientes (1).

La DI y las enfermedades que la causan habitualmente no tienen cura, se presentan como condiciones crónicas en cuyo caso los tratamientos médicos y de rehabilitación, aun siendo considerados efectivos, no “curarán” la DI, razón por la cual la medición de efectividad de las intervenciones en estos pacientes debería tener como objetivo primario el efecto sobre la CVRS, tal como lo perciben los pacientes y los cuidadores (6). Las intervenciones terapéuticas que se apliquen en esta población deben buscar el bien supremo, que es considerado por la ética aristotélica como la felicidad, o la meta final, que es concebida como una condición de vida, no como un estado temporal, por lo cual, las acciones para mejorar la CVRS de un grupo, deben evaluarse en la permanencia de una experiencia para la vida y no solamente en una experiencia temporal en la vida como lo son varios de los desenlaces que consideramos objetivos de las intervenciones en salud.

Platón, también aportó a esta reflexión cuando pensó en qué tipo de bien es necesario para alcanzar la felicidad. Este bien, según Platón, deviene de la ética de gobernar y que en ambientes académicos y profesionales se pudiera entender como la aplicación del conocimiento derivado de la investigación puesto al servicio de grupos vulnerables. Es decir, que la investigación clínica podría aportar desde su objetividad a favorecer la meta final, la felicidad de los pacientes. Los profesionales de la salud e investigadores con la generación del conocimiento como ejercicio del poder para gobernar pueden implementar acciones para el bien social, para alcanzar la felicidad y para mejorar la CVRS de los usuarios (7).

Otro de los argumentos éticos para considerar la evaluación de la CVRS como desenlace en salud en personas con DI es la teoría de los mínimos éticos, basada en los derechos humanos, y que encuentra apoyo en la teoría de Jürgen Habermas en particular, en conceptos tales como “democracia deliberativa”, “confianza cívica”, “legitimidad” y “deberes morales”. Los mínimos éticos hacen referencia a las condiciones y comportamientos mínimos de convivencia comunes en los diferentes ámbitos sociales, al considerar elementos básicos en los que todos pueden estar de acuerdo y que posibilitan la convivencia y la tolerancia (8).

En el concepto de democracia deliberativa de la teoría de Habermas, se puede entender cómo la participación de las personas con DI consideradas vulnerables, en procesos que los atañen como su salud, a través de instrumentos PROM, (9) es un ejercicio que permite la mejor elaboración de sus afectaciones, que promueve el aporte de la sociedad a proteger dicha participación y dignifica los derechos de las personas con DI como ciudadanos activos (10). Esta teoría está en consonancia con lo propuesto en el artículo 8 de la Declaración Universal sobre Bioética y Derechos Humanos de la UNESCO (9), en el cual se establece que “al aplicar y fomentar el conocimiento científico, la práctica médica y las tecnologías conexas, se debería tener en cuenta la vulnerabilidad humana, y que aquellos individuos y grupos considerados vulnerables deberían ser protegidos y respetados en su integridad personal”. Por ende, la evaluación de la CVRS como desenlace es un medio para favorecer esta participación y la protección de sus derechos humanos y, a la vez, un esfuerzo por garantizar la convivencia social.

Hasta aquí se han planteado argumentos éticos y filosóficos para considerar la CVRS en personas con DI desde su propia perspectiva, sin embargo, estos argumentos éticos también plantean dilemas con el uso de la CVRS en personas con DI, que requieren ser considerados.

Desde el punto de vista político, la CVRS es ya considerada un desenlace en salud empleado en estudios de costo utilidad de las intervenciones terapéuticas, por lo cual, es un aspecto clave en la consideración del uso de los recursos económicos, siempre limitados en los sistemas de salud. El derecho a la salud está influenciado por la escasez de recursos, lo que hace que el gasto deba estar dirigido a intervenciones de efectividad comprobada, que impliquen un costo razonable. En este caso, la CVRS puede ser considerada en la determinación de “efectividad comprobada” de las intervenciones (11).

Esta situación plantea un dilema ético sobre la utilización de los recursos que tiene impacto en la toma de decisiones en salud, desde un nivel micro -la persona- y desde la política pública y la asignación de recursos económicos en salud. Esto plantea preocupaciones como si ¿podría ser utilizada la CVRS como un medio para justificar la limitación de los recursos para las personas con DI en intervenciones que no resulten costo-efectivas? o ¿podrían ser más costosas

las intervenciones en salud que promuevan la CVRS en personas con DI?

En este caso, es necesario aclarar que las mediciones de la CVRS posibilitan la disminución de los costos sin sacrificar el beneficio de los usuarios, al permitir la prevención de los problemas de salud y el seguimiento de los tratamientos y el uso de los medicamentos, permitiendo que se puedan seleccionar los que resulten mejores y menos costosos.

Algunos investigadores que consideran importante la CVRS como desenlace en esta población han incorporado la medición a través de instrumentos *proxy* que permiten evaluar la CVRS del paciente desde la perspectiva del cuidador y no desde la perspectiva del paciente que vive la condición de DI. Esto permite aproximarse a la CVRS de los pacientes sin sortear las dificultades que implica medirla directamente en los pacientes, dado que las personas pueden tener diferentes niveles de severidad de la discapacidad, lo que implicaría medir en ellos la capacidad de entendimiento para comprender el funcionamiento de la prueba y la escala y su capacidad de asentimiento para saber si el paciente realmente quiere participar o no a través del diligenciamiento de un instrumento de CVRS.

Esta situación plantea otro de los dilemas éticos de la evaluación de la CVRS en personas con DI y es el que resulta de la tensión entre la autonomía y el paternalismo de la beneficencia. La beneficencia se refiere a hacer el bien al paciente más que el mal, mientras que la autonomía propende por el derecho del paciente a tomar decisiones relacionadas con las intervenciones que recibirá o no. El aspecto paternalista de la beneficencia ha llevado a los profesionales de la salud a tomar decisiones en pro del bienestar del paciente incluso sin el consentimiento del mismo. El principio de autonomía incorporado en la Declaración de Derechos de los Estados Unidos abarca el derecho del paciente a saber, el derecho del paciente a consentir el tratamiento, el derecho a rechazar el tratamiento y a la confidencialidad y la intimidad.

En el caso de optar por medir la CVRS como desenlace en personas con DI desde la perspectiva de sus cuidadores, primaría el principio de beneficencia al considerar la voz y la opinión de los padres y cuidadores por encima de la del paciente. Además, se ha demostrado la diferencia entre la perspectiva del cuidador y del paciente en la evaluación de la CVRS del paciente, entre otras razones porque para el cuidador es muy difícil separar su propia calidad de vida de la del paciente (12).

Otra de las controversias sobre la CVRS como desenlace en esta población son los aspectos metodológicos y la complejidad de su medición. Quienes están en desacuerdo con la medición de la CVRS como desenlace, consideran que no es factible su evaluación, dado que los datos derivados de estas evaluaciones son imprecisos y los métodos de medición vagos por lo cual puede ser considerada un “desenlace blando”, existiendo así una preocupación de lo que ha sido considerado como “ciencia dura”, sea reemplazada por resultados blandos (13).

Para empezar, es importante identificar lo que la ciencia sabe y reconocer lo que no, a partir del método científico del paradigma cuantitativo. Es decir, lo que el método científico permite conocer cuando se logra extraer un proceso de su medio ambiente, controlar todas las variables menos una, la variable independiente, y se cuantifica el efecto determinado en los cambios de la variable dependiente o de resultado (14).

En el método científico cuantitativo, quizás el que más se utiliza en ciencias de la salud, la interpretación de los resultados dependerá del éxito con el que se pueda llevar a cabo este proceso, de la selección de las variables dependientes, de los instrumentos y las características operativas, de la validez y confiabilidad de los resultados obtenidos, y de las características de la población. Cuánto más satisfactoriamente se cumplan estos criterios, más estrechos pueden ser los límites de confianza de los resultados obtenidos en estas variables para decir que una intervención es o no efectiva. Estas son las bondades permitidas en el experimento y lo que este permite saber del paciente, pero a su vez, estos aportes limitados del método científico al entendimiento de un problema de salud son muy criticados a la hora de extrapolar los resultados a un contexto real, menos controlado (15).

En el escenario clínico, un tratamiento no será efectivo si no se cumplen al menos dos criterios. El primero, debe ser posible administrar el tratamiento al paciente en el mundo real, con todas las limitaciones que éste tiene. Segundo, debe haber medidas de resultado que permitan cuantificar el efecto del tratamiento. Estas medidas de resultado, deben ser comprensibles y relevantes para los pacientes, cuya perspectiva es emocional y personal, en contraposición a las medidas de resultados que interesarían a los profesionales desde un paradigma positivista, por lo cual la medición de la CVRS como desenlace carecería de rigor.

Favoreciendo la perspectiva del paciente en el ámbito de la investigación en salud, muchos países se han comprometido activamente con la participación pública de los pacientes, como ejemplo en nuestro contexto colombiano, la participación de los pacientes en la generación de guías de práctica clínica y recomendaciones basadas en la evidencia (16). En estos escenarios de participación, los pacientes pueden establecer sus prioridades y necesidades de intervenciones en salud tanto en el desarrollo de estas como en su evaluación y además, su participación mejora la forma en que se da prioridad, comunica y utiliza la investigación (17).

El Servicio Nacional de Salud de Inglaterra (NHS) sostiene que todos los países deberían contribuir a favorecer la participación pública de los pacientes, especialmente de aquellas personas que enfrentan mayores desventajas en salud y resultados en salud más pobres. Se sabe que las personas con DI se enfrentan a desventajas, tienen peores resultados de salud y mayor mortalidad cuando se comparan con la población general (18).

Este favorecimiento a la participación pública de personas con DI se ha denominado investigación inclusiva. Para ser considerada como inclusiva debe cumplir cinco caracterís-

ticas: el problema de investigación debe ser prioridad de la persona con DI; la investigación debe fomentar los intereses de las personas con discapacidad; la investigación debe realizarse en colaboración con las personas que presentan la condición; durante todo el proceso de investigación las personas con DI deberían poder participar en las fases de la investigación; la pregunta de investigación, el proceso y los resultados deben ser accesibles para las personas con DI (19).

A pesar de que la investigación inclusiva es más costosa y su desarrollo toma más tiempo, se han descrito sus aportes al conocimiento que ésta tiene, sobre todo en escenarios en los que las personas con DI pueden hacer una contribución distinta que sus cuidadores y cuando su participación contribuye a mejorar su propia CVRS (19).

La participación de las personas con DI impone unos retos metodológicos que se convierten a su vez en argumentos en contra para su evaluación. Si bien, esto plantea la necesidad del desarrollo de instrumentos para medir la CVRS, exactos y precisos. Para lograr este objetivo, el investigador tendría que aceptar, que efectivamente por las características del desenlace y de la población, se sacrificaría la precisión, pero el beneficio estaría en el uso de una medida de desenlace que incluya la perspectiva del paciente, con menor influencia del modelo biomédico que hemos venido usando y nos acerque un poco más a la humanidad, a la tarea complicada de ver al otro como un “todo”, desde un paradigma más constructivista, lo que favorece la transformación de las capacidades de los sistemas de atención de salud para abordar cuestiones de mayor preocupación para los pacientes (20).

También existe preocupación en la comunidad científica sobre lo cambiante y personal que puede ser el constructo de CVRS, incluso en una misma persona, es decir que las dimensiones importantes de la CVRS para una misma persona pueden cambiar con el tiempo, con su condición de salud o con otras comorbilidades, esto preocupa a la hora de pensar si realmente se pueden crear instrumentos desde los que se pueda generalizar a la población un constructo tan complejo y tan individual, lo que plantea nuevamente dudas éticas y morales sobre si podemos llegar a defender un modelo sobre lo que sería CVRS para la población con DI (21).

Frente a estas preocupaciones se podrían plantear argumentos que podrían parecer simplistas ante estas dudas filosóficas profundas que plantea la definición del constructo de CV, que es indiscutiblemente subjetivo. El primer argumento es que cuando se plantea la definición de este constructo se debería considerar la postura de los grupos o categorías de personas, más que por las verdades que puedan aportar las personas individualmente. En estos casos, los instrumentos de evaluación de la CVRS deberían aproximarse a las experiencias de grupos o poblaciones que pueden ser definidas como aquellas que comparten una condición de salud en particular, por ejemplo, la CVRS en personas que viven con cáncer; o en grupos que comparten servicios o áreas de atención determinadas como la CVRS en unidades de cuidados intensivos; o aquellos que comparten como característica una

intervención terapéutica como la evaluación de la CVRS en pacientes tratados con quimioterapia (1, 22).

Este sería el mismo principio que se aplica en investigaciones clínicas, que buscan tener una muestra representativa que permita inferir el resultado que se pudiera obtener de una variable en una población, sin pretender, explicar lo que le sucede a una persona en particular.

El segundo argumento es que las evaluaciones de la CVRS en la atención de la salud no deberían estar preocupadas por los juicios absolutos sobre lo que es una buena o mala CVRS sino más bien, sobre los aspectos que permitirían dirimir principalmente entre una u otra circunstancia específica, o entre una intervención o la otra. Con la evaluación de la CVRS de un grupo de personas no se pretende de ninguna manera hacer juicios de valor, o comparar su CVRS con un patrón o modelo de buena CVRS; por el contrario, lo que se busca es explorar si un grupo de personas reporta experiencias más favorables en respuesta a una circunstancia determinada, que puede ser una intervención terapéutica, es decir, si en las dimensiones que son importantes para este grupo, los pacientes experimentan diferencias con una intervención en comparación a otra.

En conclusión, es indudable que si la atención de salud tiene por objetivo aumentar el bienestar de las personas con DI y generar impactos que trasciendan en su vida, y no se limiten sólo a los aspectos fisiopatológicos, se deben integrar los datos sobre mediciones de CVRS junto con la medición de los desenlaces cuantitativos duros para que en conjunto, éstos dirijan el diagnóstico, el tratamiento y la atención de salud. La inclusión de la CVRS nos ubica en un paradigma constructivista en el que la realidad del paciente pueda ser interpretada desde su valiosa perspectiva, favorezca su autonomía y le dé más sentido humano a los logros terapéuticos.

Agradecimientos

A la dirección de Investigación e Innovación de la Universidad del Rosario, a la Escuela de Medicina y Ciencias de la Salud de la Universidad del Rosario y Programa de Doctorado en Epidemiología Clínica de la Facultad de Medicina de la Pontificia Universidad Javeriana. A los profesores María Beatriz Ospina y Diego Rosselli.

Referencias

1. Czajkowski SM. Health-related quality of life outcomes in clinical research: NHLBI policy and perspectives. *Ann Thorac Surg*. 1998 Oct;66(4):1486–7.
2. Urzúa MA. Calidad de vida relacionada con la salud: Elementos conceptuales. *Rev Médica Chile*. 2010 Mar;138(3):358–65.
3. Aristóteles. Ética nicomaquea. Ediciones Colihue SRL; 2007. 492 p.
4. Schipper H. Why measure quality of life? *Can Med Assoc J*. 1983 Jun 15;128(12):1367–70.
5. Valderas JM, Ferrer M, Mendivil J, Garin O, Rajmil L, Herdman M, et al. Development of EMPRO: a tool for the standardized assessment of patient-reported outcome measures. *Value Health J Int Soc Pharmacoeconomics Outcomes Res*. 2008 Aug;11(4):700–8.
6. Katschnig H. Quality of life in mental disorders: challenges for research and clinical practice. *World Psychiatry*. 2006 Oct;5(3):139–45.
7. Rentería MGD. Filosofía de la ciencia del cuidado Analogía del mito de la caverna de Platón con la profesión de enfermería / philosophy of science of caring. The Allegory of the Cave by Plato with the nursing profession. *RICS Rev Iberoam Las Cienc Salud*. 2014 Nov 27;2(3):21–34.
8. Habermas J. La inclusión del otro: estudios de teoría política. Paidós; 1999. 258 p.
9. Declaración universal sobre Bioética y Derechos Humanos: UNESCO [Internet]. [cited 2019 Jun 9]. Available from: http://portal.unesco.org/es/ev.php-URL_ID=31058&URL_DO=DO_TOPIC&URL_SECTION=201.html
10. Correa L, Javier F. Pobreza, vulnerabilidad y calidad de vida en América Latina: Retos para la bioética. *Acta Bioethica*. 2011 Jun;17(1):19–29.
11. Dean HE. Political and ethical implications of using quality of life as an outcome measure. *Semin Oncol Nurs*. 1990 Nov;6(4):303–8.
12. Eiser C, Morse R. Can parents rate their child's health-related quality of life? Results of a systematic review. *Qual Life Res*. 2001 Jun;10(4):347–57.
13. Guyatt GH, Feeny DH, Patrick DL. Measuring health-related quality of life. *Ann Intern Med*. 1993 Apr 15;118(8):622–9.
14. VanderKaay S, Moll SE, Gewurtz RE, Jindal P, Loyola-Sanchez A, Packham TL, et al. Qualitative research in rehabilitation science: opportunities, challenges, and future directions. *Disabil Rehabil*. 2018 Mar;40(6):705–13.
15. Califf RM. Pragmatic clinical trials: Emerging challenges and new roles for statisticians. *Clin Trials Lond Engl*. 2016;13(5):471–7.
16. Guía metodológica para la elaboración de Guías de Atención Integral.pdf [Internet]. [cited 2017 Jan 31]. Available from: <https://www.minsalud.gov.co/Documentos%20y%20Publicaciones/GUIA%20METODOLOGICA%20PARA%20LA%20ELABORACION%20DE%20GU%20C3%8DAS%20DE%20ATENCIÓN%20INTEGRAL.pdf#search=%252Cgu%252C%2520metodologica%2520para%2520a%2520elaboraci%2520B3n%2520de%2520gu%2520a%2520de%2520pr%2520a%2520cl%2520adnca>
17. Beighton C, Victor C, Carey IM, Hosking F, DeWilde S, Cook DG, et al. "I'm sure we made it a better study...": Experiences of adults with intellectual disabilities and parent carers of patient and public involvement in a health research study. *J Intellect Disabil JOID*. 2019 Mar;23(1):78–96.
18. Carey IM, Shah SM, Hosking FJ, DeWilde S, Harris T, Beighton C, et al. Health characteristics and consultation patterns of people with intellectual disability: a cross-sectional database study in English general practice. *Br J Gen Pract J R Coll Gen Pract*. 2016 Apr;66(645):264–270.
19. Walmsley J, Strnadová I, Johnson K. The added value of inclusive research. *J Appl Res Intellect Disabil JARID*. 2018 Sep;31(5):751–9.
20. Deyo RA, Patrick DL. Barriers to the use of health status measures in clinical investigation, patient care, and policy research. *Med Care*. 1989 Mar;27(3 Suppl):S254–268.
21. Fitzpatrick R. Principles and problems in the assessment of quality of life in health care. *Ethical Theory Moral Pract Int Forum*. 1999;2(1):37–46.
22. Novák M, Stauder A, Mucsi I. [Significance and practical aspects of quality-of-life research]. *Orv Hetil*. 2003 May 25;144(21):1031–8.

