



UNIVERSITÀ
DEGLI STUDI
FIRENZE

Dottorato di Ricerca in Scienze Psicologiche

ciclo XXVIII

COORDINATORE Prof. Cristina Stefanile

Aspetti psicologici della sclerodermia

Settore Scientifico Disciplinare M-PSI/08

Dottorando
Dott. Pietrini Francesco

Francesco Pietrini

Tutore
Prof. Cosci Fiammetta

Fiammetta Cosci

Coordinatore
Prof. Stefanile Cristina

Cristina Stefanile

Anni 2012/2016

SINOSI

Un'ampia letteratura scientifica evidenzia che il benessere fisico e psicosociale dei pazienti affetti da sclerodermia sia gravemente compromesso. Alcuni fattori di tipo clinico e psicosociale, fra cui le esperienze avverse precoci, la psicopatologia, il comportamento di malattia, la resilienza e la qualità della vita correlata alla salute, sembrano particolarmente coinvolti nell'impatto di questa malattia sulla salute del paziente. Ad oggi, tuttavia, tali dimensioni sono state per lo più indagate separatamente, in assenza di una visione complessiva sull'argomento. Lo scopo del presente elaborato è stato indagare gli aspetti psicologici sopracitati in un campione di soggetti affetti da sclerodermia ed approfondirne i rapporti con la malattia alla luce di un confronto con un campione di soggetti sani. Il presente studio ha incluso un campione clinico di 110 soggetti affetti da sclerodermia (96 femmine) ed un campione di controllo di 110 soggetti sani selezionati dalla popolazione generale ed appaiati ai casi per sesso, età e livello d'istruzione. Oltre ad un'indagine sulla presenza di esperienze avverse precoci, la valutazione dei partecipanti allo studio ha previsto l'utilizzo dei seguenti strumenti: la Mini-International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I. Plus) e il Self-Report Symptom Inventory-Revised (SCL-90-R) per gli aspetti psicopatologici, l'Illness Behavior Inventory (IBI) per il comportamento di malattia; il Brief Assessment of Sense of Coherence (BASOC) e la Pearlin & Schooler's Sense of Mastery Scale (SOM) per le dimensioni di resilienza psicologica e lo Short Form (36) Health Survey (SF-36) per la qualità della vita correlata alla salute. I risultati della presente ricerca indicano che, rispetto ai controlli sani, i soggetti affetti da sclerodermia hanno una frequenza significativamente superiore di esperienze avverse precoci (soprattutto perdita della madre e di abuso sessuale) e di sintomi e disturbi psichiatrici (soprattutto episodio depressivo maggiore, attacchi di panico paucisintomatici e disturbo d'ansia generalizzata). Inoltre, rispetto ai controlli sani, i pazienti con sclerodermia mostrano un comportamento di malattia più disfunzionale, un minor senso di padronanza

rispetto alla propria vita ed una qualità della vita significativamente più compromessa. Infine, delle dimensioni psicologiche valutate, quelle che hanno dimostrato una maggiore relazione funzionale con la sclerodermia sono l'ideazione paranoide, l'interferenza del comportamento di malattia sull'attività lavorativa e la compromissione dello stato di salute generale.

INDICE

Capitolo I. Introduzione	4
1.1 La sclerodermia	4
1.2 Sclerodermia ed esperienze avverse precoci	7
1.3 Sclerodermia e psicopatologia	9
1.4 Sclerodermia e comportamento di malattia	13
1.5 Sclerodermia e resilienza	17
1.6 Sclerodermia e qualità della vita	23
1.7 Obiettivi dello studio	25
Capitolo II. Metodi	27
2.1 Partecipanti	27
2.2 Valutazione	28
2.3 Strumenti	28
2.4 Procedura di analisi dei dati	41
Capitolo III. Risultati	42
3.1 Caratteristiche socio-demografiche e cliniche del campione	42
3.2 Esperienze avverse precoci	44
3.3 Psicopatologia	44

3.4 Comportamento di malattia	47
3.5 Resilienza	48
3.6 Qualità della vita	49
3.7 Potenziali predittori di sclerodermia	50
Capitolo IV. Discussione e conclusioni	52
4.1 Discussione	52
4.2 Limiti dello studio	59
4.3 Conclusioni	60
Bibliografia	62

Indice delle Tabelle e delle Figure

Tabella 2.3.1. Brief Assessment of Sense of Coherence	35
Tabella 2.3.2. Pearlin and Schooler's Sense of Mastery Scale	37
Tabella 2.3.3. Dimensioni valutate dall'SF-36	38
Tabella 2.3.4. Esempio di item dell'SF-36	40
Tabella 3.1.1. Caratteristiche socio-demografiche e cliniche del campione	43
Tabella 3.2.1. Esperienze avverse precoci	44
Tabella 3.3.1. Diagnosi	45
Tabella 3.3.2. Sintomatologia	46
Tabella 3.4.1. Comportamento di malattia	48
Tabella 3.5.1. Sense of Coherence, Sense of Mastery	48
Tabella 3.6.1. Qualità della vita	49
Tabella 3.7.1. Possibili predittori di sclerodermia. Regressione logistica multivariata aggiustata per esperienze avverse precoci, diagnosi psichiatrica in corso, terapia psicofarmacologica.	51
Figura 1.1.1. Effetti dello stress psicosociale sul sistema immunitario mediati dall'attivazione del SNA e dell'asse HPA e dalla conseguente induzione del fattore di trascrizione NF-κB.....	7

Capitolo I

Introduzione

1.1 La sclerodermia

La sclerodermia o sclerosi sistemica (SSc) è una malattia cronica sistemica del tessuto connettivo di tipo autoimmune (Le Roy et al., 1988) caratterizzata da diffuse alterazioni vascolari e da fibrosi ed indurimento della cute e di alcuni organi. In greco antico “sclerodermia” significa letteralmente “*pelle dura*”, ad indicare una delle principali manifestazioni di questa patologia che provoca l'ispessimento (e indurimento) della cute e che, nei casi più gravi, interessa anche i tessuti degli organi interni (polmoni, apparato gastrointestinale, reni, cuore) (Steen, Powell, & Medsger, 1988).

Epidemiologia

Le attuali evidenze epidemiologiche fanno considerare la sclerodermia una malattia rara che colpisce prevalentemente le donne, con un rapporto di incidenza fra genere maschile e femminile compreso fra l'1:1 e il 14:1 ed un picco di età di insorgenza nella quarta decade di vita (Chiffot, Fautrel, Sordet, Chatelus, & Sibilia, 2008). Negli Stati Uniti l'incidenza è di circa 19 nuovi casi per anno per milione di abitanti, con una prevalenza che si aggira intorno a 19-75 casi per 100.000 abitanti (Galeazzi, Bellisai, & Porciello, 2000). Questa malattia risulta più frequente tra gli afro-americani, gli indiani d'America Choctawa e gli abitanti di Castel S. Pietro Romano in Italia. In Italia l'incidenza di questa patologia si aggira tra 4 e 20 nuovi casi per 1.000.000 per anno e la prevalenza è tra 30 e 450 casi per 1.000.000 (Mayes, 2003; Chiffot, Fautrel, Sordet, Chatelus, & Sibilia, 2008). Le persone colpite, nel nostro paese, sono circa 25.000, con un numero stimato di circa 1.000 nuovi casi annui, soprattutto tra le donne. Un ruolo importante predisponente alla patologia sembra giocato da *fattori ambientali* oltre che genetici (Galeazzi, Bellisai, & Porciello, 2000). Per la sclerodermia non è possibile rilevare differenze significative tra gemelli omozigoti e dizigoti relativamente alla concordanza della malattia

(Feghali-Bostwick, Medsger, & Wright, 2003), il che sembra dimostrare che i fattori ambientali abbiano un ruolo maggiore rispetto a quelli genetici nel determinare la malattia.

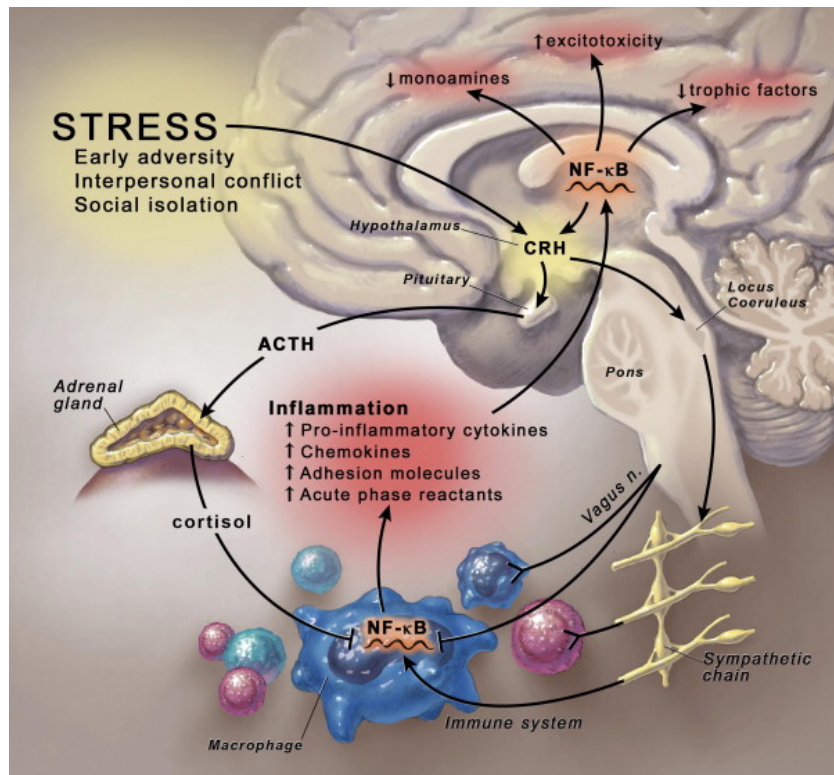
Ruolo dello stress nella sclerodermia

L'evidenza scientifica disponibile fa ritenere che, sebbene l'esatta eziologia della sclerodermia non sia ancora nota, essa insorga in soggetti geneticamente predisposti in seguito ad uno stimolo ambientale ignoto. Fattori quali agenti infettivi, stress ossidativo, esposizione a solventi organici sono stati proposti come probabili agenti eziologici (Artlett, Smith, & Jimenez, 1999) in grado di esplicare la loro azione su un ambiente genetico predisponente e quindi di causare modificazioni cellulari e molecolari patologiche (Jimenez & Christner, 2004). In questo ambito, importanti contributi alla ricerca sull'eziopatogenesi della sclerodermia provengono dalla Psico-Neuro-Endocrino-Immunologia (PNEI), una disciplina che si incentra sullo studio delle interazioni fra il sistema nervoso e immunitario e sulle relazioni tra processi mentali e salute fisica. In breve, la risposta allo stress fisiologico è coordinata principalmente dall'ipotalamo, mediante l'attivazione del ramo simpatico del Sistema Nervoso Autonomo (SNA) e dell'asse ipotalamo-ipofisi-surrene (asse HPA), con conseguente rilascio di catecolamine e cortisolo. Questi ormoni dello stress, agendo sui recettori per i glucocorticoidi e α - e β -adrenergici, hanno la capacità di regolare verso il basso (*down-regolare*) i processi immunitari ed infiammatori. Accanto a tale effetto del sistema di risposta allo stress sul sistema immunitario, esiste un effetto contrario dei processi infiammatori sul sistema nervoso. Infatti, alcune citochine prodotte dai leucociti durante il processo infiammatorio, quali il fattore di necrosi tumorale α (TNF- α), l'interleuchina 6 (IL-6) e l'interleuchina 1 (IL-1), sono in grado di stimolare il sistema nervoso. Livelli elevati di citochine, come quelli presenti durante un'inflammatione cronica, potrebbero portare ad alterazioni dell'asse HPA e dell'attività del SNA. A conferma di ciò, il ruolo delle citochine nei fenomeni di fibrosi tipici della sclerodermia è stato ampiamente documentato (Jimenez & Christner, 2004; Jimenez & Derk, 2004). Nelle malattie reumatiche autoimmuni si riscontra anche un rapporto sbilanciato fra linfociti T-helper di tipo 1 e 2 (Elenkov, 2004): queste sottopopolazioni di linfociti

rilasciano differenti profili di citochine. I linfociti Th1 rilasciano TNF e IL-2, che attivano reazioni citotossiche, infiammatorie e di ipersensibilità ritardata, mentre i linfociti Th2 producono IL -4, -5, -6, -9, -10, e -13 e sono associate a risposte anticorpali e allergiche. L'azione di queste citochine sui fibroblasti umani *in vitro* è opposta: IL-4, IL-6 e IL-13 stimolano la sintesi di collagene, mentre TNF sopprime la produzione di collagene. Lo spostamento della risposta verso il tipo Th2 può indurre fibrosi del tessuto e produzione di anticorpi e, infatti, nella SSc esiste uno sbilanciamento nella produzione delle citochine a favore di quelle prodotte dai linfociti di tipo Th2 (Derk & Jimenez, 2003). I mediatori di infiammazione sono quindi in grado di attivare sia l'asse HPA sia il SNA (Chrousos, 1995).

Inoltre, studi sperimentali su popolazioni sane suggeriscono che i fattori di stress psicologico e sociale siano in grado non solo di attivare il SNA e l'asse HPA, ma influenzino anche il sistema immunitario, stimolando l'immunità innata e la produzione del fattore di trascrizione Nuclear Factor kappa-light-chain-enhancer of activated B cells (NF- κ B) (Bierhaus et al., 2003) (Fig. 1.1.1). Tale effetto si tradurrebbe in un minor numero di cellule *Natural Killer* (NK) circolanti (Zorrilla et al., 2001); in un'aumentata produzione di citochine pro-infiammatorie IL-6, IL- α , IL- β e TNF- α (Dantzer, O'Connor, Freund, Johnson, & Kelley, 2008); in una diminuita produzione linfocitaria di RNA messaggero codificante i recettori dei glucocorticoidi e per quelli *Toll-like* (Miller et al., 2009) e in un aumento di alcuni mediatori dell'infiammazione, fra cui la Proteina C Reattiva (PCR) ed il Fibrinogeno (Danese, Pariente, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007). Dal momento che nella sclerodermia e nelle altre malattie reumatiche autoimmuni sembrano evidenti sia un aumento dell'infiammazione che un deficit dei meccanismi antinfiammatori, è lecito supporre un ruolo centrale dello sbilanciamento fra fattori pro- e anti-infiammatori in queste patologie. In definitiva, sembra che una predisposizione genetica associata alla presenza di esperienze stressanti (in particolare durante l'età evolutiva) sia in grado di innescare una disfunzione primaria dell'asse HPA e possa in tal modo incidere sullo sviluppo e sul decorso della sclerodermia costituendone un fattore patoplastico (Hermann, Scholmerich, & Straub, 2000; Danese, Pariente, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Stojanovich & Marisavljevic, 2008; Dube et al., 2009; Hassett & Clauw, 2010).

Figura 1.1.1. Effetti dello stress psicosociale sul sistema immunitario mediati dall'attivazione del SNA e dell'asse HPA e dalla conseguente induzione del fattore di trascrizione NF- κ B.



1.2 Scleroderma ed esperienze avverse precoci

Come detto in precedenza, la letteratura scientifica evidenzia come lo stress sembri svolgere un ruolo importante nell'eziopatogenesi della scleroderma (Chen, Huang, Qiang, Wang, & Han, 2008; De Brouwer et al., 2010) e come alcuni fattori psicosociali coinvolti nella risposta individuale allo stress possano influenzare la storia naturale della malattia (Malcarne & Greenbergs, 1996; Richards et al., 2004; Hyphantis et al., 2007a; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Malcarne, Fox, Mills, & Gholizadeh, 2013), per esempio modulando la percezione della propria qualità di vita dei soggetti che ne sono affetti [Hawley, Wolfe, & Cathey, 1992; Moser, Clements, & Brecht, 1993; Hyphantis et al., 2007b; Hudson et al., 2009; Stamm et al., 2011; Frantz et al., 2016].

Il concetto di esperienza avversa è strettamente legato a quello di stress: spesso infatti i termini “esperienza avversa”, “evento di vita”, “trauma” o “evento stressante” sono usati come sinonimi. In termini operazionali, le esperienze di vita stressanti possono essere definiti come “*quegli avvenimenti che si verificano nella vita degli individui, modificandola in modo sostanziale e ponendo l’individuo di fronte ad uno sforzo adattivo necessario per affrontare la nuova situazione; gli eventi di vita sono oggettivamente identificabili e circoscrivibili in un preciso periodo di tempo*” (Biondi & Brunetti, 1988). Tuttavia, oltre alla componente oggettiva che delimita i confini dell’evento/esperienza, il vissuto dell’individuo (ovvero la componente soggettiva) e le sue caratteristiche, in termini di adattamento, giocano un ruolo importante per quanto riguarda le conseguenze associate al suo verificarsi. Dal momento che le persone interpretano diversamente la stessa esperienza, non necessariamente un evento oggettivamente negativo provoca reazioni patologiche; e, allo stesso modo, esperienze oggettivamente positive non sempre rappresentano fattori protettivi nei confronti della malattia. Ciò che risulta determinante è l’attribuzione di significato all’evento da parte dell’individuo, che si traduce in una scarsa prevedibilità nell’esperienza clinica, accompagnata da incongruenze nel rapporto tra evento e risposta soggettiva (Ambrosi, Pavan, & Vender, 1985). Per questo motivo è molto difficile documentare una relazione lineare di tipo causa-effetto tra *esperienze avverse* e malattia: da diversi autori è stato proposto, piuttosto, un modello di relazione circolare tra evento e manifestazione patologica (Lteif & Mavissakalian, 1995).

Le esperienze avverse vengono comunemente suddivise in base al periodo della vita in cui si sono verificate. Si definiscono pertanto *esperienze avverse precoci* quegli eventi stressanti che si verificano nel periodo dell’infanzia e/o adolescenza (i primi 17 anni di vita del soggetto) e che, per questo, sono considerati fattori importanti nel predisporre alla patologia (Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Stojanovich & Marisavljevich, 2008; Dube et al., 2009; Hassett & Clauw, 2010). Considerando il livello di cortisolo come un *marker* del funzionamento surrenale associato a patologie stress-correlate, soggetti con esperienze avverse precoci mostrano in età adulta un alterato ritmo circadiano del cortisolo (Meinlschmidt & Heim, 2005). Ciò conferma le ipotesi di una disregolazione

dell'asse HPA che resterebbe tale anche in età adulta. Le esperienze avverse precoci, pertanto, potrebbero potenzialmente inficiare le risposte adattive allo stress in età adulta, riducendo la capacità di risposta ai glucocorticoidi (Heim et al., 2000). Così, una persistente carenza di cortisolo in soggetti precocemente traumatizzati e/o esposti a stress cronico, potrebbe causare una maggiore vulnerabilità a disturbi autoimmuni, sindromi infiammatorie, dolorose croniche, allergiche e asmatiche (Heim, Ehlert, Hanker, & Hellhammer, 1998; Castro et al., 2005). Una risposta inadeguata del sistema ormonale dello stress provocherebbe una maggiore attività degli altri sistemi allostatici come le *citochine proinfiammatorie* che, non regolate da adeguati livelli di cortisolo e catecolamine, predisporrebbero il soggetto allo sviluppo di patologie infiammatorie. A questo proposito, alcuni studi hanno mostrato una correlazione fra abuso in età infantile e presenza, in età adulta, di malattie reumatiche autoimmuni quali fibromialgia e artrite reumatoide (Castro et al., 2005; Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007). In un altro importante studio (Dube et al., 2009) è stata osservata una forte associazione tra esperienze avverse precoci e sviluppo di malattia autoimmune in età adulta (Glaser et al., 2004; Stojanovich et al., 2010). Infine, il ruolo delle esperienze avverse precoci nell'impatto globale della sclerodermia sulla salute psicofisica del paziente sembra ormai confermato da un'ampia letteratura scientifica (Hermann, Scholmerich, & Straub, 2000; Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Stojanovich & Marisavljevic, 2008; Dube et al., 2009; Hassett & Clauw, 2010).

1.3 Sclerodermia e psicopatologia

La ricerca sui pazienti affetti da sclerodermia ha mostrato un'importante relazione tra questa patologia e la presenza di psicopatologia (Roca, Wigley, & White, 1996; Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Edwards et al., 2006; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Baubet et al., 2010; Mura, Bhat, Pisano, Licci, & Carta, 2012). Gli studi hanno evidenziato che i pazienti sclerodermici sviluppano spesso sindromi psicopatologiche clinicamente rilevanti, fra le quali le più frequenti sono caratterizzate da elevati livelli d'ansia, sintomi di somatizzazione,

sintomi ossessivo-compulsivi, problematiche interpersonali (Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Baubet et al., 2010) e depressive (Roca et al., 1996; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007).

Depressione e sclerodermia

Fino al 65% dei pazienti con sclerodermia presenta alterazioni del tono dell'umore in senso depressivo (Legendre et al., 2005). I sintomi depressivi sono stati associati ad un aumento del rischio di morbilità e mortalità della sclerodermia e alcuni studi ipotizzano che, in generale, le sindromi depressive siano associate ad un peggior funzionamento neuroendocrino ed immunitario (Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Leon et al., 2014). Non è noto se la depressione sia associata ad una peggior evoluzione della sclerodermia, ma i dati disponibili suggeriscono che i sintomi depressivi sono una complicanza frequente di questa patologia (Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Baubet et al., 2010; Del Rosso et al., 2013; Leon et al., 2014, Nguyen et al., 2014). Roca et al. (1996) hanno riportato che i due terzi del campione clinico indagato presentava sintomi depressivi lievi/moderati e che questi ultimi erano correlati alla gravità della malattia sclerodermica. In un recente studio condotto su 142 pazienti sclerodermici, Benrud-Larson et al. (2002) hanno confermato i risultati di Roca et al. (1996), individuando nel campione una presenza moderata di depressione. In uno studio del 2007, il 53% dei pazienti intervistati da Thombs et al. (2007) riferivano di aver avuto un disturbo dell'umore fino ad un anno prima dell'esordio della malattia. Esistono tuttavia alcuni sintomi, fra i quali sintomi digestivi aspecifici, perdita di peso e affaticamento, che sono comuni nella sclerodermia e che possono essere confusi con sintomi depressivi di tipo somatico (Thombs et al., 2007). E' possibile, quindi, che la sintomatologia depressiva in corso di sclerodermia possa essere sovrastimata.

Benrud-Larson et al. (2002) hanno esteso lo studio dei disturbi dell'umore nei pazienti sclerodermici includendo nel modello concettuale anche la sintomatologia dolorosa, il funzionamento fisico e sociale, sottolineando il ruolo che questi ultimi rivestono nello sviluppo della sintomatologia depressiva. I risultati indicano che più la sintomatologia organica della sclerodermia è grave e deturpante, maggiore è il rischio di sviluppare una sintomatologia depressiva (Benrud-Larson et al., 2002;

Haythornthwaite, Heinberg, & McGuire, 2003). A conferma di ciò, altri dati suggeriscono che i pazienti più giovani, quelli con ulcere digitali e quelli con una maggior compromissione funzionale sviluppano sintomi depressivi più gravi (Rannou et al., 2007). Al contrario, altri studi suggeriscono che la risposta emotiva dei pazienti affetti da sclerodermia sia maggiormente associata al significato che il soggetto attribuisce alla propria condizione piuttosto che alla gravità della sintomatologia (Richards et al., 2003). Nello studio di Roca et al. (1996), i soggetti affetti da ulcere digitali dolorose e/o da un alto grado di compromissione funzionale mostravano un punteggio più alto alle scale di valutazione della depressione rispetto a pazienti con una minore compromissione funzionale, ma, sorprendentemente, altri indicatori di gravità della malattia sclerodermica, in particolare quelli di tipo clinico (per esempio, il livello di alterazione della funzionalità polmonare o del microcircolo) non correlavano con la gravità della sintomatologia depressiva. In questo studio (Roca et al., 1996), inoltre, gli indicatori di nevrosi, di compromissione funzionale e di mancanza di sostegno sociale sono risultati maggiormente correlati con la presenza di sintomatologia depressiva. Risultati simili sono stati riportati anche da studi su altre malattie reumatiche autoimmuni come l'artrite reumatoide (Peck, Smith, Ward, & Milano, 1989). In ogni caso, complessivamente, questi risultati suggeriscono che i sintomi depressivi siano molto comuni nella sclerodermia e che ciò sia probabilmente da mettere in relazione anche con il grado di disabilità percepito dal soggetto (Del Rosso et al., 2013; Nguyen et al., 2014).

Indipendentemente dal fatto che questi sintomi rappresentino quadri clinici conclamati di disturbo depressivo in corso di sclerodermia, la loro elevata prevalenza suggerisce che la valutazione (ed eventuale trattamento) rappresenta un provvedimento importante nella gestione clinica di questi pazienti. Numerosi studi hanno dimostrato che ad un maggiore disagio psicologico corrisponde una maggiore disabilità, in particolare nei casi in cui sussiste una difficile situazione socio-economica e lavorativa (Malcarne & Greenbergs, 1996; Roca et al., 1996; Del Rosso et al., 2013; Malcarne, Fox, Mills, & Gholizadeh, 2013; Nguyen et al., 2014). Inoltre, è stato evidenziato che nei soggetti sclerodermici ad una peggiore sintomatologia depressiva sia legata anche a una peggiore comunicazione inter-familiare (Malcarne & Greenbergs, 1996). In effetti, i pazienti sclerodermici che ricevono un trattamento

per la depressione spesso manifestano un miglioramento della condizione medica generale, un incremento della qualità della vita ed una migliore risposta alla terapia (Lamberg, 1996). E', inoltre, importante ricordare che nella sclerodermia (come in altre malattie reumatiche autoimmuni) elementi quali la sintomatologia dolorosa, i fattori psico-sociali, alcuni aspetti di personalità, gli eventi di vita stressanti e le strategie di coping si sono dimostrati i migliori predittori della presenza di sintomi depressivi (Haythornthwaite, Heinberg, & McGuire, 2003).

Ansia e sclerodermia

La fibrosi cutanea, il sintomo fisico predominante della sclerodermia (in grado di condurre, in un periodo di tempo variabile, all'irrigidimento di tutta la cute), causa ai pazienti la sensazione che il proprio corpo sia oppresso da un "armatura" (Mozzetta et al., 2007). La metafora della "corazza" fornisce una comprensione molto chiara di ciò che i pazienti affetti da sclerodermia provano con il progredire della malattia. La pelle è spesso definita, da un punto di vista psicologico, come la "coperta" che avvolge il corpo e definisce i suoi confini; i pazienti con sclerodermia soffrono una coperta rigida e stretta che limita una delle funzioni fondamentali della pelle: la funzione tattile, la base di contatto con gli altri e con se stessi. Questi soggetti sentono progressivamente la pelle irrigidirsi intorno al corpo e gli arti diventare meno mobili. I movimenti diventano limitati, il corpo si indurisce e si deforma e, come risultato di questa progressiva trasformazione, l'immagine di Sé e la propriocezione si alterano fino al punto di esitare in un vero e proprio disturbo dismorfofobico (Mozzetta et al., 2007). Nei pazienti con sclerodermia, la paura di una valutazione negativa da parte degli altri (Watson & Fiend, 1969) può generare forme di evitamento delle situazioni sociali (Leary, Rapp, Herbst, Exum, & Feldman, 1998). Sentimenti di vergogna, disgusto e disprezzo di Sé e del proprio corpo possono essere concause di disturbi depressivi (Thombs et al., 2007). I pazienti che sono più preoccupati per il proprio aspetto fisico possono limitare la quantità delle interazioni sociali, andando incontro a ritiro sociale e ad una possibile depressione reattiva (Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune, 2004). In uno studio di Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune (2004), l'analisi di regressione multipla ha indicato, infatti, che fattori cognitivi relativi alla paura di una valutazione

negativa sono correlati con la presenza di ansia. Nello stesso studio, inoltre, la variabile clinica maggiormente correlata con la presenza di ansia è risultata la disfunzione respiratoria associata alla sclerodermia. Iperventilazione e altri sintomi somatici correlati sono spesso citati in relazione a stati ansiosi e le difficoltà incontrate nella respirazione potrebbero contribuire allo sviluppo di preoccupazioni e sintomi d'ansia in quei pazienti che hanno una compromissione polmonare (Smoller, Pollack, Otto, Rosenbaum, & Kradin, 1996). Gli studi che hanno indagato la presenza di disturbi d'ansia nei pazienti affetti da sclerodermia hanno riportato una prevalenza di sintomi d'ansia clinicamente significativi molto alta, compresa fra il 36% e il 58.8% (Baubet et al., 2010; Del Rosso et al., 2013; Nguyen et al., 2014).

1.4 Sclerodermia e comportamento di malattia

Il concetto di comportamento di malattia deriva dal “ruolo sociale della persona malata” formulato dal sociologo Talcott Parsons (1951). Egli definì tale costrutto per descrivere la situazione nella quale alcune persone, mettendo in atto questo comportamento, possono essere esonerate dai propri obblighi e dal proprio ruolo abituale, approvati e legittimati dai familiari o da altre persone significative. In questo caso, il “ruolo di malato” ha la precedenza su tutti gli obblighi della persona, ad esempio, i ruoli occupazionali e familiari, fornendo consapevolmente o inconsapevolmente, una via di fuga per questi soggetti di fronte a richieste intollerabili e condizioni di stress. Parsons scrive: *"La malattia può essere trattata come una modalità di risposta alle pressioni sociali, tra le altre cose, come un modo per eludere le responsabilità sociali"* (1951). Quindi, quella del malato non è una situazione soggettiva ma uno status sociale, da intendersi come la posizione di un individuo nel proprio gruppo sociale. Nel caso di malattie gravi tale ruolo può comportare una rottura col passato e richiedere una ridefinizione della propria personalità. Due sono i tratti fondamentali che comporta questo status sociale: l'esonero dagli impegni e la dipendenza dalla struttura sanitaria. L'esonero consiste nella sospensione dell'impegno nel sociale del soggetto. L'esonero è un obbligo che, da un lato offre al paziente un'area protetta che gli assicura il vantaggio di sottrarsi

allo stress della vita quotidiana, ma dall'altro determina l'esclusione dalla vita sociale. La dipendenza invece è l'atto di consegnarsi in tutto e per tutto al medico, rassegnandosi all'idea che la guarigione non dipende dalla propria volontà e dai propri sforzi, ma dall'aiuto degli altri, in particolare degli specialisti.

Nel 1965, Edward Suchman approfondì quanto descritto da Parsons, ed identificò cinque fasi in cui una persona acquisisce un'immagine di Sé come paziente (Suchman, 1965):

- La prima fase è quella di percezione del sintomo, nella quale il soggetto si rende conto che qualcosa non va, come la percezione di dolore, disagio, malessere generale, o qualche interruzione nel funzionamento fisico. Tre distinti processi si verificano in questo momento: dolore fisico o disagio, il riconoscimento cognitivo che sono presenti i sintomi fisici di una malattia, e una risposta emotiva di preoccupazione per le implicazioni sociali del suo status.
- La seconda fase è invece quella dell'assunzione del ruolo di ammalato, nella quale il paziente si rende conto di essere ammalato e di avere bisogno di un medico. Se la persona accetta che i sintomi sono un segno di malattia e sono sufficientemente preoccupanti, assume il ruolo di malato e comincia a cedere parte o tutti i ruoli sociali "normali".
- La terza fase è quella della presa di contatto con l'assistenza sanitaria, in cui l'individuo decide di rivolgersi ad un medico.
- La quarta fase è detta "del ruolo di paziente-dipendente", in cui il soggetto decide di trasferire al medico il controllo della propria salute e di seguire il trattamento prescritto, il percorso di guarigione o di riabilitazione.
- Con l'inizio della quinta ed ultima fase il paziente dovrebbe fare ogni sforzo per guarire.

Alcune persone, naturalmente, godono però dei benefici del ruolo di malato (ad esempio, maggiore attenzione e la fuga per le responsabilità di lavoro) e tentano di apparire malati. Tuttavia, l'autore suggerisce che il ruolo che la persona ricopre sia influenzato da numerosi fattori: gravità della patologia (acuta o cronica), reazioni culturalmente accettate, capacità di resilienza dell'individuo, dalla natura e dalla portata del sostegno sociale. Per molte persone, inoltre, le credenze spirituali ed il

sistema di supporto offerto da un gruppo religioso sono tra i meccanismi più importanti usati per trattare la malattia.

Successivamente Mechanic e Volkart (1960) hanno rielaborato il concetto di ruolo di malato per riadattarlo ad un nuovo concetto, rivolto maggiormente all'individuo e non alla sua posizione nella società ovvero il comportamento di malattia (Illness Behavior). Tale comportamento è stato definito dal suo autore come *“la modalità in cui determinate sintomatologie possano essere diversamente percepite, valutate e – eventualmente – agite (o non agite) da differenti persone”* (Mechanic & Volkart, 1960) ovvero il modo in cui gli individui reagiscono agli aspetti del proprio funzionamento, da essi valutati in termini di “salute” e “malattia”. Esso comprende tutti i modi in cui una persona fronteggia la propria malattia, che si manifesta in modo diverso in base a come l'individuo percepisce la gravità dei segni o sintomi, la loro frequenza e persistenza, la tolleranza e capacità di valutarli anche in base alle informazioni disponibili e la misura in cui i sintomi influiscono sul lavoro, la famiglia o la vita sociale in generale (Mechanic & Volkart, 1960). Pertanto, persone che riportano gli stessi sintomi potrebbero comportarsi in maniera molto diversa: alcuni potrebbero cercare immediatamente una soluzione ed un aiuto medico, mentre altri potrebbero ignorare i sintomi e non cercare mai un aiuto clinico. È evidente dunque come nella condizione di malattia al pari di ogni altra esperienza, gli aspetti cognitivi, affettivi e comportamentali siano intrinsecamente connessi, costituendo un evento multidimensionale che non si esaurisce nella sola dimensione fisica ma comprende anche fattori sociali e psicologici. Le reazioni di fronte a tale evento sono quindi legate alla valutazione che l'individuo conferisce alla situazione e alle sue convinzioni sviluppate a riguardo che determinano l'atteggiamento nei confronti della malattia stessa, influenzando il comportamento sociale (Biondi, 1991).

Più recentemente Mechanic (1995) ha descritto il comportamento di malattia come *“comportamenti che nascono per cause complesse, tra cui predisposizioni biologiche, la natura della sintomatologia riferita dal paziente, i modelli di risposta appresi durante l'infanzia, predisposizioni attribuzionali, influenze situazionali e le caratteristiche di accesso al sistema sanitario oltre che ai benefici secondari”*. Alcuni studi hanno, infatti, ipotizzato che il modo nel quale gli individui rispondono

ai sintomi fisici possa essere relativo all'influenza di alcuni fattori intervenuti durante lo sviluppo, come per esempio l'ambiente familiare ed il modo in cui i genitori hanno reagito di fronte a sintomi o malattia del bambino stesso (Craig, Bialas, Hodson, & Cox, 2004). È infatti plausibile che la reazione di un bambino alla malattia tenda a rispecchiare quella mostrata dai genitori stessi e che ricevere attenzione selettiva da parte dei genitori verso la salute fisica, ignorando i bisogni emozionali del bambino, possa condurre all'interiorizzazione di un modello operativo interno positivo dell'altro in rapporto alla sofferenza fisica, riproposto e riattivato in età adulta in momenti di difficoltà (Stuart & Noyes, 1999).

Proprio per definire e verificare la presenza di un tipo di comportamento di malattia disadattivo in età adulta è stato coniato il termine "comportamento abnorme di malattia" da Issy Pilowsky (Pilowsky, 1971). L'autore definisce tale costrutto come: *"La persistenza di un modo di percepire, valutare e agire inappropriato o disadattato rispetto al proprio stato di salute, malgrado un medico abbia offerto una spiegazione ragionevolmente lucida sulla natura della malattia e una terapia appropriata"* (Pilowsky, 1971). Le più recenti ricerche indicano che il comportamento di malattia sia influenzato da stati psicologici di disagio (Dickens & Creed, 2001; Rief, Martin, Antje Klaiberg, & Brähler, 2005) e che in combinazione a disturbi medici influisca fortemente sui costi sanitari (Simon, Ormel, VonKorff, & Barlow, 1995) e possa indurre una scarsa aderenza da parte dei pazienti ai trattamenti (van Duijn, Kuyvenhoven, Schellevis, Theo, & Verheij, 2007). Un'eccessiva preoccupazione per i propri sintomi somatici e per il trattamento sono stati osservati in pazienti con patologie respiratorie (van Duijn, Kuyvenhoven, Schellevis, Theo, & Verheij, 2007), cardiache (Walsh, Lynch, Murphy, & Daly, 2004) e pazienti affetti da disturbi psichiatrici (Taylor, Creed, & Hughes, 1997; Guo, Kuroki, & Seiji, 2000; Hafner et al., 2003). Studi recenti hanno evidenziato che il comportamento di malattia svolga un ruolo importante nell'influenzare il benessere ed il funzionamento dei pazienti con sclerodermia, sebbene ad oggi non siano disponibili molti studi su questo argomento (Richards et al., 2003; Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune, 2004; McNearney et al., 2007; Hyphantis et al., 2009; Hudson et al., 2010; Merz et al., 2013, 2014).

1.5 Sclerodermia e resilienza

Nella seconda metà del novecento le ricerche degli psicologi si sono focalizzate sulle parti sane dell'individuo, sulle sue risorse psicologiche, contribuendo così ad un cambiamento di prospettiva, e cioè al passaggio dalla cura della malattia alla promozione della salute. Antonovsky (1980, 1987) è stato tra i primi a proporre il concetto di *salutogenesi* e a porsi l'obiettivo di individuare le componenti del benessere psicologico. Nella stessa direzione, Seligman, lavorando sulla prevenzione e nell'ottica di curare e riparare i deficit, le carenze e le patologie, studiò la comprensione di "ciò che rende le persone felici, di quelle caratteristiche che costruiscono una personalità positiva, di ciò che rende la vita degna di essere vissuta" (Seligman & Csikszentmihalyi, 2000). All'interno di questi nuovi paradigmi, in Europa ed in America, sono cresciute le ricerche sui bambini che a dispetto dell'alto rischio di devianza, dovuto a problemi familiari o sociali, avevano uno sviluppo positivo, e sugli adulti che, nonostante avessero vissuto nella vita guerre, violenze, abusi o incidenti, avevano trovato un equilibrio che li aveva portati ad avere un'esistenza gratificante (Werner & Smith, 2001). Tra questi studi, quello più celebre e all'interno del quale per la prima volta si parla di resilienza fu quello di Werner e Smith (Werner & Smith, 1992). Werner (1993) condusse una ricerca longitudinale su 698 neonati dell'isola Kauai (Hawaii), seguendoli per circa trenta anni. Circa un terzo di questi neonati avevano tutti i prerequisiti per una prognosi di disagio psichico o sociale, in quanto esposti a fattori di rischio (i.e., nascita difficile, povertà, famiglie con problemi di alcolismo, malattie mentali, aggressività). Al contrario delle previsioni, un terzo di questi bambini era riuscito in età adulta a migliorare la propria condizione di vita ed era diventato da adulto in grado di avviare relazioni stabili, impegnarsi sul lavoro e prodigarsi per gli altri. Quindi, Werner definì la resilienza come "*il consolidarsi delle competenze del soggetto posto in situazioni stressanti*".

Il termine resilienza utilizzato in psicologia è una metafora di un evento misurabile in fisica, ovvero dell'attitudine di un corpo a resistere senza rotture a sollecitazioni esterne brusche o durature di tipo meccanico (Devoto, 1971). Un significato equivalente è riscontrabile anche in altre discipline. In biologia la

resilienza è la capacità di auto-ripararsi dopo un danno, mentre in ecologia tanto più un ecosistema è dotato di variabilità dei fattori ambientali, tanto più le specie che vi appartengono sono dotate di un'alta resilienza. Nel linguaggio informatico la resilienza di un sistema operativo è rappresentata dalla capacità di adattamento alle condizioni d'uso e di resistenza all'usura. La resilienza psicologica può quindi essere considerata come la capacità di affrontare le avversità della vita, superarle e continuare a svilupparsi aumentando le proprie risorse con una conseguente riorganizzazione positiva (Malaguti, 2005). La resilienza è attualmente un ambito di studio per molte discipline scientifiche ed è un concetto indagato da diversi punti di vista. Le neuroscienze, per esempio, pongono l'attenzione sulla funzione plastica del cervello capace di sostenere il soggetto traumatizzato grazie alla riattivazione funzionale di circuiti neuronali del benessere (Le Doux, 1996). La psicobiologia studia la riorganizzazione del sistema biologico in risposta al trauma e al dolore (Damasio, 1994).

All'interno di una pluralità di apporti scientifici, possono essere rintracciate molteplici definizioni del termine resilienza che, pur differenziandosi per riferimenti teorici e fattori evidenziati, hanno come elemento comune la visione della complessità del fenomeno e l'individuazione di diverse variabili tra loro in interazione (Putton & Fortugno, 2006). In psicologia la resilienza è considerata la capacità di evolversi anche in presenza di fattori di rischio (Rutter, 1979; Luthar & Ziegler, 1991). E' con gli studi di Rutter sui bambini nati da madri schizofreniche che comincia ad accendersi l'interesse della comunità scientifica sul tema della resilienza. Dal momento che molti bambini del campione seguito non presentavano psicopatologia o comportamenti disadattivi, Rutter propose una prima definizione di resilienza quale risposta "positiva" di un soggetto allo stress e alle condizioni avverse (Rutter 1979; 2007). Cyrulnik (2000) definisce la resilienza come una trama dove il filo dello sviluppo si intreccia con quello affettivo e sociale (Anaut, 2003) e sostiene che essere resilienti non significa essere invulnerabili, inaccessibili alle emozioni, alla sofferenza. Nella prospettiva psicosociale, riconoscere che la persona, la famiglia, il gruppo, la comunità si situano all'interno della storia della persona resiliente consente di trovare dei collegamenti con il modello ecologico umano e sociale di Bronfenbrenner (1979). All'interno di questa prospettiva, Emiliani (1995)

ha presentato la resilienza come una competenza che si sviluppa all'interno della dimensione relazionale e viene accresciuta e fortificata da tutte le esperienze in grado di favorire un sentimento di efficacia personale e di valorizzazione del Sé. Nell'ambito della prospettiva psicosociale, il concetto di resilienza è utilizzato anche in riferimento ai gruppi e alle comunità per indicare una condizione che amplifica la coesione dei membri fortificando le risorse vitali di coloro che ne sono coinvolti (Grotberg 1995; Newman & Blackburn, 2002; Cyrulnik & Malaguti, 2005). In un'ottica sistemica, la resilienza viene considerata la capacità di un sistema di far fronte ai cambiamenti imprevisti e improvvisi, provocati dall'esterno e di superare queste crisi attraverso un cambiamento qualitativo in grado di mantenere la coesione strutturale e funzionale del gruppo. La resilienza del singolo quindi, si sviluppa nella capacità dei sistemi sociali connessi (i.e., famiglia, scuola, società) di creare delle condizioni protettive per supportare le difficoltà legate al trauma (Bronfenbrenner, 1979).

Il concetto di resilienza si è trasformato nel tempo passando da una concezione statica ad una più dinamica e, quindi, da una visione della resilienza come tratto della personalità ad una come processo. La resilienza come tratto è stata definita da Wagnild e Young (1993) come una "caratteristica personale che modera gli effetti negativi dello stress e promuove l'adattamento". Secondo Miller (1988), la resilienza è una combinazione di caratteristiche fisiologiche e di fattori di personalità. All'interno di questa ottica si collocano gli studi che si sono focalizzati sull'identificazione di quelle caratteristiche fisiche e psicologiche che consentono all'individuo di superare le avversità. Uno dei primi studi ha cercato di individuare quei tratti di personalità che sembravano d'aiuto dopo una perdita. Tra le caratteristiche evidenziate, vi era: una visione equilibrata della vita, la perseveranza, la fiducia in sé stessi, il senso di unicità, l'attribuzione di significato alla vita (Wagnild & Young 1993). Secondo Benard (1991), le caratteristiche delle persone resilienti sono relative all'autonomia, alla capacità di problem solving, alle abilità sociali. Altre importanti caratteristiche resilienti sono state identificate dagli studiosi all'interno della psicologia positiva (Seligman & Csikszentmihalyi, 2000) e tra queste ci sono: la felicità (Buss, 2000), il benessere soggettivo (Diener, 2000), l'ottimismo (Peterson, 2000), la fede (Myers, 2000), l'autodeterminazione (Ryan & Deci, 2000),

la creatività (Simonton, 2000), la saggezza (Baltes & Staudinger, 2000), l'autocontrollo (Baumeister & Exline, 2000). Per sintetizzare le numerose qualità resilienti individuate nel corso degli anni da differenti studiosi, Burns (1996) ha individuato quattro macro aree relative ad autonomia (i.e., autostima, autoefficacia, indipendenza, motivazione, speranza), capacità di problem solving (i.e., pensiero critico, pensiero creativo, progettualità, capacità di produrre cambiamenti), abilità sociali (i.e., flessibilità, responsabilità, empatia abilità comunicative), propositi per il futuro (i.e., chiarezza di obiettivi, successo, motivazione, tenacia, speranza, coerenza).

Rutter (1985) ha inizialmente proposto un modello nel quale resilienza e vulnerabilità erano collocate agli estremi di un continuum e la risposta ad un evento avverso poteva andare a collocarsi in un punto qualsiasi di questo continuum. Secondo Rutter, gli effetti dei fattori protettivi erano rilevabili solo in presenza dell'evento stressante ed il loro ruolo era quello di modificare la risposta di fronte alle avversità. Nel 1987, Rutter approfondì lo studio degli effetti dei fattori protettivi e li contrappose ai fattori di rischio. Questa nuova visione sarà successivamente ripresa e ampliata da Garmezy (1991) che considerò resilienti gli individui che riescono a non avere un cattivo adattamento nonostante vivano e si confrontino con condizioni di rischio.

Richardson (2002) con il suo modello, ha tentato di compiere un'integrazione considerando la resilienza sia come un tratto determinato geneticamente che come un processo. Questo modello considera l'esistenza in ognuno di qualità resilienti innate, di propensioni alla resilienza, che vengono, durante il corso della vita, rafforzate attraverso momenti di sospensione dello stato di equilibrio (i.e., eventi stressanti, avversità, ma anche opportunità, nuove possibilità) al quale il soggetto ritorna attraverso capacità resilienti.

Kumpfer (1999) ha considerato invece la resilienza come l'influenzata da sei diversi fattori: eventi stressanti, contesti ambientali, processi transazionali tra persona e ambiente, fattori di resilienza interna, processo di resilienza, adattamento e reintegrazione. Lo stress, seguendo le teorizzazioni di Lazarus e Folkman (Lazarus e Folkman, 1984), non deriverebbe dalla natura dell'evento in sé ma dal come viene valutato e percepito. Le persone di fronte all'evento valutano se hanno o meno le

risorse richieste per affrontarlo e si chiedono quali possono essere le conseguenze. Lo stress quindi deriverebbe da questa personale valutazione della domanda come eccessiva per le proprie capacità di coping e potenzialmente portatrice di conseguenze negative. A questa valutazione cognitiva si aggiunge la valutazione del contesto in cui viene posta la domanda. La relazione tra la persona ed il proprio ambiente è quindi posta in un interscambio dinamico e nel caso ci sia una buona corrispondenza tra le richieste dell'ambiente e le risorse personali a disposizione, il livello di stress percepito sarà basso. In caso contrario, il livello di stress sarà elevato. Secondo Kumpfer (1999), la capacità di affrontare in modo resiliente gli eventi stressanti sarebbe influenzata da alcune caratteristiche personali (i.e., fiducia in se stessi, autoefficacia, locus of control interno, ottimismo, speranza) e le persone che possiedono queste qualità tenderebbero ad essere più persistenti e determinate e ciò influenzerebbe l'essere resilienti.

La ricerca internazionale sulla resilienza è aumentata sostanzialmente negli ultimi due decenni (Haskett, Nears, Ward, & McPherson, 2006) a causa dell'insoddisfazione conseguente a modelli di malattia e psicopatologia centrati sul deficit (Fergus & Zimmerman, 2005). Il tema della resilienza e, più in generale, della *salutogenesi*, sta ricevendo un interesse crescente in termini di politiche e prassi socio-sanitarie, proprio in relazione al suo potenziale in termini di promozione del benessere e della qualità della vita (Windle, Bennett, & Noyes, 2011).

Il senso di coerenza

Antonovsky (1980, 1987) è stato tra i primi a proporre il concetto di *salutogenesi* e a porsi l'obiettivo di individuare le componenti del benessere psicologico. I suoi studi nascono da interviste fatte a sopravvissuti all'Olocausto. L'esito di queste interviste fu l'individuazione del concetto di "*autocoerenza*" che per lo studioso comprendeva tre componenti fondamentali della personalità da tutelare e rispettare all'interno di ogni forma di promozione della salute:

- la capacità di poter esercitare un controllo: anche se in maniera limitata o anche solo nella fantasia è importante sentire di esercitare un controllo sulla situazione;

- la comprensibilità: comprendere e riordinare quanto di minaccioso sta accadendo aiuta ad affrontare le situazioni difficili;
- il significato: è l'esito delle due capacità precedenti e include anche le esperienze di vita personale.

Le risorse di resistenza sono legate a comportamenti che Antonovsky ha organizzato nel costrutto del "Senso di Coerenza" (*Sense Of Coherence* o SOC), sostenendo che il modo in cui una persona percepisce la propria vita ha un'influenza positiva sulla sua salute. Secondo Antonovsky, il SOC di una persona si sviluppa durante l'infanzia, fino agli ultimi stadi dell'adolescenza. Durante questo periodo, l'individuo è esposto a stati di tensione che richiedono una mobilitazione delle risorse appropriate per rispondere ai fattori stressanti. Antonovsky ritenne che il SOC aumenti tanto più quanto gli stati di tensione siano percepiti come comprensibili, affrontabili e significativi, riducendo così la possibilità di disagio psicologico. Nel tempo, saper gestire ripetutamente e in modo salutare gli eventi rinforza il SOC dell'individuo, incrementando le sue risorse per affrontare il futuro. Alla fine della terza decade di vita, il SOC è divenuto un orientamento disposizionale stabile (Richardson, 2002).

Il SOC è fortemente associato alla salute percepita, ed in particolare alla salute mentale, e predice lo stato di salute (Frenz, Carey & Jorgensen, 1993; Kravetz, Drory & Florian, 1993; Zayne, 1997; Kuuppelomaki & Utriainen, 2003; Eriksson & Lindstrom, 2006; Eriksson, Lindstrom & Lija, 2007). Una ricerca prospettica condotta nel Regno Unito (Surtees, Wainwright, Luben, Khaw, & Day, 2006) ha testato l'ipotesi che una disposizione ad un forte *senso di coerenza* coincidesse con un ridotto rischio di mortalità. Gli autori hanno rilevato, in un campione 20.579 partecipanti con età compresa tra 41-80 anni e osservati per un periodo di circa 6 anni (tra il 1996 e il 2002), che un forte *senso di coerenza* era associato ad una riduzione del 30% nella mortalità generale, indipendentemente da età, sesso, classe sociale, tabagismo, indice di massa corporea, pressione arteriosa, livelli di colesterolo ematico e presenza di ostilità e nevrosi. Nella sclerodermia, il SOC sembra efficace nella gestione della depressione (Matsuura, et al., 2003; Hyphantis et al., 2007b). Infatti, in uno studio di Hyphantis et al. (2007b), bassi livelli di SOC sono risultati significativamente associati ad un maggior livello di disagio psicologico.

Il senso di padronanza

Il “*Senso di Padronanza*” o “*Sense of Mastery*” è, insieme al senso di coerenza, una fondamentale fonte di resilienza psicologica e di coping (Schieman, 2001). Il concetto di *Sense of Mastery* (SOM) fa riferimento all’abilità di gestire efficacemente la propria vita e l’ambiente circostante. Il costrutto appare dimensionalmente correlato alla resilienza e alla psicologia del funzionamento positivo nella sua accezione più ampia.

Le persone con basso SOM attribuiscono gli eventi al destino e negano la possibilità di avere un controllo sugli eventi negativi che possono accadergli. L’assenza di padronanza è collegata ad una diminuzione dell’autostima e dell’autoefficacia e di conseguenza del benessere, trattandosi di risorse personali che permettono di gestire i fattori di stress.

A differenza di altri costrutti, come ad esempio quello di autoefficacia, non è specifico, ovvero non riguarda un particolare dominio di vita (ad esempio, il raggiungimento di un risultato specifico) ma si riferisce ad un senso globale di controllo degli eventi di vita e dell’ambiente (Thompson & Spacapan, 1991).

Dalla letteratura disponibile emerge che uno scarso *senso di padronanza* è spesso associato a basso livello di istruzione ed elevato disagio psicologico, unitamente a scarso supporto sociale e frequenti eventi di vita negativi (Gadalla, 2009a, 2009b). A differenza delle patologie cardiovascolari e metaboliche (Mausbach et al., 2008), nelle patologie reumatiche questo costrutto è stato scarsamente indagato sebbene in queste patologie esso sembri rappresentare una dimensione altamente correlata con il benessere percepito (Abraido-Lanza, Guier, & Revenson, 1996; Ivarsson, Ekmeahag, Hesselstrand, Rådegran, & Sjöberg, 2014).

1.6 Sclerodermia e qualità della vita

Il funzionamento fisico e psicosociale dei pazienti, o qualità della vita, è uno degli argomenti più rilevanti per chi si occupa di sanità (Taylor, 2006). La riflessione su questo tema si è consolidato intorno alla seconda metà del ventunesimo secolo, periodo in cui sono state gettate le basi per un’idea di salute diversa da quella di

allungamento della vita o assenza di disturbi (Taylor & Aspinwall, 1990). E' del 1948 la concettualizzazione di salute dell'Organizzazione Mondiale della Sanità (OMS) che fa coincidere la salute non solo con l'assenza di malessere, ma soprattutto con la presenza di una “*condizione completa di benessere*” fisico, psichico e sociale (Mucciarelli, Chattat, & Celani, 2002).

La qualità della vita è generalmente molto compromessa nei pazienti con sclerodermia ed è principalmente influenzata dalla presenza di dolore cronico (Georges et al., 2006; Hyphantis et al., 2007b; Stamm et al., 2011; Frantz et al., 2016). Nell'ultimo decennio, un numero limitato di studi ha indagato la qualità della vita (Quality of Life, QoL) dei pazienti affetti da sclerodermia, riportando come questi ultimi abbiano una qualità della vita peggiore di quella dei controlli sani, ma simile a quella dei pazienti con altre malattie reumatiche (Georges et al., 2006; Hyphantis et al., 2007b; Stamm et al., 2011; Frantz et al., 2016). È invece ben documentato che circa la metà dei pazienti con sclerodermia abbia sperimentato sintomi depressivi da lievi a gravi (Roca et al., 1996; Suarez-Almazor, Kallen, & Roundtree, 2000; Cossutta et al., 2002; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007), ma gli studi sul loro impatto sulla qualità della vita sono limitati (Danieli et al., 2005; Thombs et al., 2010; Nguyen et al., 2014). E' probabile che l'associazione tra sintomi depressivi e disabilità sia bidirezionale nella sclerodermia e, in una sorta di circolo vizioso, contribuisca a compromettere la percezione della qualità della vita in questa patologia (Danieli et al., 2005). In uno studio di Hyphantis et al. (2007b), l'associazione tra psicopatologia e compromissione della qualità di vita dei pazienti con sclerodermia si è dimostrata significativa. Nello studio condotto da Georges et al. (2006) su un campione di pazienti sclerodermici sono stati ottenuti risultati interessanti con il questionario *Short Form (36) Health Survey* (SF-36)(Ware & Sherbourne, 1992): la sintomatologia dolorosa è risultata correlata con le sottoscale “cambiamento dello stato di salute” e “salute mentale” del questionario. Infine, un recente studio internazionale condotto su 1902 soggetti con sclerodermia provenienti da 60 diversi paesi ha riportato che la qualità di vita correlata alla salute sia particolarmente compromessa in questi pazienti, soprattutto nelle aree del funzionamento fisico e dello stato emotivo e in relazione al grado di estensione della malattia (Frantz et al., 2016).

1.7 Obiettivi dello studio

Un'ampia letteratura scientifica evidenzia che il benessere fisico e psicosociale dei pazienti con sclerodermia sia gravemente compromesso (Haythornthwaite, Heinberg, & McGuire, 2003; Joachim & Acorn, 2003; Thombs et al., 2010; Cinar et al., 2012; Malcarne, Fox, Mills, & Gholizadeh, 2013; Kwakkenbos et al., 2015; Gumuchian et al., 2016; Nakayama et al., 2016). Nonostante gli studi sugli aspetti psicologici di questa compromissione non siano numerosi, alcuni fattori clinici e psicosociali sembrano particolarmente coinvolti nell'impatto globale della sclerodermia sulla salute psicofisica del paziente, in particolare:

- la presenza di esperienze avverse precoci (Hermann, Scholmerich, & Straub, 2000; Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Stojanovich & Marisavljevich, 2008; Dube et al., 2009; Hassett & Clauw, 2010);
- la presenza di psicopatologia (Roca, Wigley, & White, 1996; Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Legendre et al., 2005; Beretta et al., 2006; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Baubet et al., 2010; Mura, Bhat, Pisano, Licci, & Carta, 2012; Del Rosso et al., 2013; Leon et al., 2014, Nguyen et al., 2014);
- il comportamento di malattia (Richards et al., 2003; Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune, 2004; McNearney et al., 2007; Hyphantis et al., 2009; Hudson et al., 2010; Ivarsson, Ekmehag, Hesselstrand, Rådegran, & Sjöberg, 2014; Merz et al., 2013, 2014);
- le risorse del soggetto in termini di resilienza (Hawley, Wolfe, & Cathey, 1992; Moser, Clements, & Brecht, 1993; Matsuura et al., 2003; Hyphantis et al., 2007a; Arat et al., 2012; Del Rosso et al., 2013; Golemati, Moutsopoulos, & Vlachoyiannopoulos, 2013; Merz et al., 2014; Frantz et al., 2016; Nakayama et al., 2016);
- la percezione soggettiva in ambito di qualità della vita correlata alla salute (Hawley, Wolfe, & Cathey, 1992; Moser, Clements, & Brecht, 1993; Cossutta et al., 2002; Del Rosso et al., 2004; Hyphantis et al., 2007b; Hudson et al., 2009; Stamm et al., 2011; Frantz et al., 2016).

Ad oggi, tuttavia, tali dimensioni psicologiche sono state per lo più indagate separatamente, quindi manca una visione complessiva sul loro contributo all'impatto della malattia sul paziente (Kwakkenbos et al., 2015; Frantz et al., 2016; Gumuchian et al., 2016; Nakayama et al., 2016). Lo scopo del presente elaborato è stato, dunque, indagare i fattori sopracitati in un campione di soggetti affetti da sclerodermia ed approfondire i loro rapporti con la malattia alla luce di un confronto con un campione di soggetti sani.

Capitolo II

Metodi

2.1 Partecipanti

Il presente studio ha incluso un campione clinico di 122 soggetti adulti affetti da sclerodermia. I soggetti sono stati arruolati in maniera consecutiva tra i pazienti afferenti agli ambulatori e al Day Hospital della Struttura Organizzativa Dipartimentale (S.O.D.) di Reumatologia dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Careggi di Firenze.

I criteri di inclusione utilizzati per il reclutamento sono stati:

- età compresa fra 18 e 75 anni;
- diagnosi di sclerodermia secondo i criteri dell'American College of Rheumatology/European League Against Rheumatism (ACR/EULAR) (van den Hoogen et al., 2013).

I criteri di esclusione utilizzati per il reclutamento sono stati:

- compromissione neurologica e/o cognitiva;
- gravidanza e/o assenza di adeguata contraccezione;
- analfabetismo e/o incapacità ad esprimere il consenso informato;
- comorbidità con abuso e/o dipendenza da sostanze (verificata con la *Mini-International Neuropsychiatric Interview*);
- presenza di altre patologie croniche e/o patologie mediche gravi o instabili che, a giudizio del medico referente della S.O.D. di Reumatologia, potessero rappresentare fattori di confondimento rispetto alle finalità dello studio (per es. presenza di patologie mediche in fase acuta o di altre patologie autoimmuni).

Dei 122 soggetti arruolati, 12 hanno rifiutato di partecipare allo studio o non hanno completato la valutazione. Il gruppo finale dei casi analizzati è risultato pertanto composto da 110 soggetti (96 femmine e 14 maschi) affetti da sclerodermia. Il gruppo di controllo (appaiato per sesso, età e livello d'istruzione) è composto da

110 soggetti sani selezionati dalla popolazione generale dell'area fiorentina. Le valutazioni del campione finale dello studio non hanno presentato dati mancanti. Tutti i partecipanti allo studio hanno firmato il modulo di consenso informato. I loro dati sono stati trattati in forma anonima nel rispetto delle norme sulla privacy ed inseriti (attraverso l'assegnazione di un codice paziente) in un database appositamente creato per l'analisi dei dati.

2.2 Valutazione

I soggetti affetti da sclerodermia inclusi nel presente studio sono stati arruolati in maniera consecutiva tra i pazienti afferenti agli ambulatori e al Day Hospital della Struttura Organizzativa Dipartimentale (S.O.D.) di Reumatologia dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Careggi di Firenze nel periodo compreso dal Luglio 2013 al Luglio 2014. Nel contesto della visita specialistica reumatologica, i soggetti arruolati sono stati sottoposti ad un assessment faccia a faccia da parte di uno psicologo clinico che ha incluso: la rilevazione di eventuali *esperienze avverse precoci* (circa 15 minuti), l'intervista diagnostica *Mini-International Neuropsychiatric Interview* (circa 15 minuti) e la somministrazione dei questionari self-report (circa 30 minuti) (si veda paragrafo 2.3). La valutazione è stata puramente osservazionale e non ha inciso in alcun modo sulle attività di diagnosi e trattamento di routine dei soggetti arruolati.

Il gruppo di controllo, appaiato per sesso, età e livello d'istruzione e composto da 110 soggetti sani selezionati dalla popolazione generale dell'area fiorentina, è stato reclutato attingendo dalle liste del Servizio Sanitario Nazionale Italiano (è inclusa nelle liste il 99,7% della popolazione) e sottoposto al medesimo protocollo di assessment utilizzato per il campione clinico.

2.3 Strumenti

Esperienze avverse precoci

La presenza di esperienze avverse precoci, ovvero avvenute nel corso dei primi 17 anni di vita, è stata valutata sia nel campione clinico che in quello di controllo. Più nel dettaglio, sono state definite e indagate le seguenti esperienze avverse precoci:

- *Perdita della madre*: morte della madre o separazione (per più di un anno) dalla madre.
- *Perdita del padre*: morte del padre o separazione (per più di un anno) dal padre.
- *Separazione dei genitori*: grave conflitto fra i genitori (i.e., divorzio, separazione legale o di fatto).
- *Grave malattia nell'infanzia*: presenza di una malattia sufficientemente grave e cronica da interferire con lo sviluppo di normali relazioni sociali (e.g., tumori in età pediatrica, diabete, malformazioni, lunghi periodi di ospedalizzazione).
- *Abuso sessuale*: coinvolgimento in attività sessuali che il soggetto non comprendeva ancora completamente, alle quali non era in grado di acconsentire con totale consapevolezza o che erano tali da violare i tabù vigenti nella società circa i ruoli familiari (Kempe & Kempe, 1978).
- *Abuso fisico*: esperienze in cui i genitori o le persone legalmente responsabili del soggetto hanno eseguito o permesso che fossero eseguite lesioni fisiche sul soggetto o hanno messo il soggetto in condizioni di rischiare lesioni fisiche (Montecchi, 1998).

La presenza delle sopracitate esperienze avverse precoci è stata indagata in modo colloquiale e non inquisitivo, ma con domande chiare e mirate (e.g. “...hai dovuto affrontare il divorzio o la separazione dei tuoi genitori?” per la separazione dei genitori, “...sei mai stato colpito/a ripetutamente o preso/a a pugni, o a calci, o bruciato da qualcuno di casa?” per le esperienze di abuso fisico, “...hai mai avuto esperienze sessuali indesiderate? ...sei mai stato/a costretto/a o persuaso/a ad avere rapporti sessuali prima dei 17 anni di età, contro la tua volontà? ...ti vengono in mente esperienze sessuali traumatiche con un adulto o con figure autoritarie?” per le esperienze di abuso sessuale). Laddove la presenza di un'esperienza avversa precoce fosse una diretta conseguenza di un'altra (e.g., separazione da un genitore conseguente ad un divorzio), solo l'evento originario è stato preso in considerazione.

Mini-International Neuropsychiatric Interview

La *Mini-International Neuropsychiatric Interview* (M.I.N.I. Plus) è stata elaborata, in maniera congiunta, dai gruppi di ricerca del Prof. Sheehan (U.S.A.) e del Prof. Lecrubier (Francia) come scala di valutazione diagnostica semi-strutturata (Sheehan et al., 1994, 1998). Gli Autori, nella progettazione, si erano posti come obiettivo quello di creare un'intervista diagnostica: breve, semplice, chiara e facile da somministrare, altamente sensibile, specifica, compatibile con i principali sistemi internazionali di classificazione diagnostica, in grado di cogliere le più importanti variazioni sub-sindromiche, utilizzabile tanto nella pratica clinica che in ambito di ricerca. La M.I.N.I. plus è stata progettata come intervista breve strutturata per i disturbi psichiatrici più importanti, sia per l'Asse I del DSM-IV che per l'ICD-10. Sono stati effettuati studi di validazione e affidabilità confrontando la M.I.N.I. alla *Structured Clinical Interview for DSM - Patient version* (SCID-P) per il DSM-III-R (Sheehan et al., 1994) e alla *Composite International Diagnostic Interview* (CIDI) (un'intervista strutturata sviluppata dalla *World Health Organization* per intervistatori non specialisti) per l'ICD-10 (Lecrubier et al., 1997; Amorim, Lecrubier, Weiller, Hergueta, & Sheehan, 1998). I risultati di questi studi mostrano sia che la M.I.N.I. plus ha ottenuto punteggi di validazione e affidabilità accettabilmente elevati, sia che può essere somministrata in tempi molto più brevi di quanto sia possibile con gli strumenti menzionati sopra (media 18.7 ± 1.6 minuti, mediana 15 minuti).

Nella versione originale della M.I.N.I. i moduli erano 19 e comprendevano 17 disturbi di asse I, un disturbo di asse II (il Disturbo Antisociale di Personalità) ed un modulo relativo al rischio suicidario. Nell'ultima versione (la versione 5.0.0 del 1998) i disturbi di asse I indagati dalla M.I.N.I. sono 14, mentre sono rimasti sia il disturbo antisociale di personalità che il rischio suicidario. Nella M.I.N.I. plus ogni disturbo indagato corrisponde ad un modulo autonomo. La maggior parte dei moduli prevede una o due domande preliminari di screening la cui negatività consente di omettere il completo excursus della sintomatologia relativa a quel disturbo e di passare direttamente al modulo successivo. Quando invece il paziente risponde positivamente alla/e domanda/e di screening si passa alla rilevazione dei sintomi che dovrebbe essere completata da domande sulla disabilità associata a quei sintomi,

sull'eventuale concomitanza con patologie somatiche e/o uso di sostanze, su eventuali lutti recenti. I sintomi che possono essere spiegati da una causa organica o dall'uso di alcol o di sostanze stupefacenti non dovrebbero essere annotati.

Nella M.I.N.I. plus i criteri di gravità e disabilità non sono sistematicamente esplorati per tutti i sintomi ma, dove necessario, vengono utilizzati dei criteri soglia. Per esempio, nel caso del sintomo “perdita/aumento di peso” del disturbo Depressivo Maggiore viene indicata una soglia del 5% come discriminante tra la positività e la negatività del sintomo. Per ogni diagnosi è chiaramente specificato il periodo da prendere in considerazione per la valutazione. Sebbene la diagnosi *lifetime* non sia prevista per tutti i disturbi indagati, il modulo di rilevazione dei sintomi psicotici si limita all'identificazione dei sintomi *lifetime* e non vengono identificati i sottotipi diagnostici. La M.I.N.I. plus è uno strumento che può essere utilizzato dai clinici dopo un breve training. Nel presente studio, un gruppo di quattro psicologi clinici è stato addestrato alla somministrazione dell'intervista attraverso un programma di training che ha previsto la frequenza delle Strutture Organizzative Dipartimentali (S.O.D.) di Psichiatria e Reumatologia dell'Azienda Ospedaliero-Universitaria Careggi di Firenze per 8 settimane, la supervisione del valutatore da parte un medico specialista in psichiatria e la verifica dell'inter-rater reliability.

Self-Report Symptom Inventory-Revised

Il questionario *Self-Report Symptom Inventory-Revised* (SCL-90-R) (Derogatis, Lipman, & Covi, 1973) è uno strumento autosomministrato per la valutazione della sintomatologia psichiatrica. Normalmente i pazienti sono in grado di compilarla in circa 15 minuti. Data la sua facilità di compilazione, è un utile strumento di screening.

Nella sua versione definitiva, l'SCI-90-R risulta composta da 90 item e valuta la presenza e la gravità di sintomi di disagio psichico nell'ultima settimana (incluso il giorno in cui avviene la valutazione) in diversi domini sintomatologici. Ad ogni item viene attribuito un punteggio su scala Likert a 5 punti, dove 0 corrisponde a “*per niente*” (il disturbo descritto nell'item corrispondente non è mai stato presente nel corso della settimana precedente, né è presente attualmente), 1 ad “*un poco*” (il disturbo descritto nell'item esplorato è stato presente occasionalmente nel corso della

settimana precedente e/o era di modesta entità), 2 a “*Moderatamente*” (il disturbo descritto nell’item esplorato è stato presente con discreta frequenza nel corso della settimana precedente e/o era di intensità lieve o moderata), 3 a “*Molto*” (il disturbo descritto nell’item esplorato è stato presente pressoché regolarmente nel corso della settimana precedente e/o era di intensità medio-grave), e 4 a “*Moltissimo*” (il disturbo descritto nell’item esplorato è stato praticamente sempre presente nel corso della settimana precedente e/o era di notevole gravità). In particolare, sono indagati sia i sintomi “internalizzanti” (i.e., depressione, somatizzazione, ansia) che quelli “esternalizzanti” (i.e., aggressività, ostilità, impulsività).

Gli item sono raggruppati in 9 dimensioni sintomatologiche primarie:

1. *Somatizzazione*: il disagio legato alla percezione di disfunzioni nel proprio corpo, in particolare rispetto agli apparati cardiovascolare, gastrointestinale, respiratorio.
2. *Ossessività e Compulsività*: pensieri, impulsi e azioni sperimentati come persistenti e irresistibili, di natura egodistonica o indesiderati.
3. *Ipersensibilità interpersonale*: sentimenti di inadeguatezza e inferiorità, in particolare in confronto ad altre persone.
4. *Depressione*: sentimenti di disperazione, pensieri suicidari e altri correlati cognitivi e somatici della depressione.
5. *Ansia*: segni generali di ansia come nervosismo, tensione, tremori e anche attacchi di panico e sensazione di terrore.
6. *Ostilità*: pensieri, sentimenti, comportamenti caratteristici di uno stato affettivo negativo di rabbia.
7. *Ansia fobica*: persistente reazione di paura a una specifica persona, luogo, oggetto o situazione, percepita come irrazionale o sproporzionata rispetto allo stimolo.
8. *Ideazione paranoide*: pensiero proiettivo, ostilità, sospettosità, grandiosità, riferimento a Sé, paura di perdita dell’autonomia e deliri.
9. *Psicoticismo*: dimensione continua dell’esperienza umana che contiene item indicativi di ritiro e isolamento e i sintomi di primo rango della schizofrenia.

Le 9 dimensioni sono state ampiamente validate su di una vasta popolazione di

pazienti psichiatrici (Derogatis, Covi, Lipman, & Rickels, 1970; Dinning & Evans, 1977; Clark & Friedman, 1983; Preti, Sarno, & Prunas, 2010). Sono presenti anche 7 item addizionali che valutano disturbi dell'appetito e del sonno.

Gli indici globali sono 3 e completano la valutazione offrendole maggiore flessibilità:

- il *Global Severity Index (GSI)*: indicatore globale dell'intensità del livello di disagio psichico, corrisponde al rapporto fra la sommatoria di tutti gli item ed il numero degli item comunque valutati ($\Sigma \text{item} / n^\circ \text{ item}$);
- il *Positive Symptom Total (PST)*: numero di sintomi totali riportati dal soggetto rispetto al numero totale di item;
- il *Positive Symptom Distress Index (PSDI)*: corrisponde al rapporto tra la somma di tutti gli item ed il PST ($\Sigma \text{item} / \text{PST}$).

Illness behavior inventory

L'*Illness Behavior Inventory (IBI)* (Turkat e Pettegrew, 1983) è uno strumento di autovalutazione in grado di misurare il comportamento anormale e normale di malattia. Il comportamento di malattia viene definito come "il comportamento di un soggetto indicante che egli ha una patologia somatica o un malessere fisico". Il comportamento anormale di malattia è invece definito come "la persistenza" di una modalità disadattiva di percepire il proprio stato di salute anche laddove il medico abbia fornito precise spiegazioni sulla malattia e offerto direttive su come affrontarla (Pilowsky, 1971). Negli ultimi anni, la valutazione del comportamento anormale di malattia è diventata una parte importante della ricerca in psicosomatica. L'*Illness Behavior Inventory* (Turkat e Pettegrew, 1983) rappresenta un valido strumento di screening nella pratica clinica. I 20 item che la compongono, sviluppati in base all'osservazione di pazienti ambulatoriali e ricoverati, misurano due dimensioni: il *comportamento di malattia in rapporto al lavoro* (con item che fanno riferimento alle limitazioni dell'attività lavorativa a causa della malattia) e il *comportamento di malattia in rapporto all'attività sociale* (con item che fanno riferimento alle limitazioni che esso comporta nella vita relazionale). Gli item sono valutati su scala Likert a 6 punti (da 1 "in completo disaccordo" a 6 "completamente d'accordo"), con un punteggio totale compreso fra 20 e 120, laddove i punteggi più

elevati indicano un comportamento di malattia più disadattivo. La validazione dell'IBI è stata effettuata con una serie di studi indipendenti comprendenti individui sani (studenti universitari di scienze infermieristiche) e malati cronici (pazienti con neuropatia diabetica), i risultati indicano che l'IBI possiede ottimi livelli di coerenza interna (Cronbach α degli item relativi al lavoro = .89, Cronbach α degli 11 item relativi alla vita sociale = .88, non sono disponibili i dati relativi all'indice totale), di affidabilità test-retest (affidabilità test-retest complessiva a due settimane = .90, affidabilità test-retest per gli item correlati al lavoro = .97 e per gli item relativi alla vita sociale = .93) (Turkat e Pettegrew, 1983).

Brief Assessment of Sense of Coherence

Il *Sence of Coherence* (SOC) (Antonovsky, 1980) è una misura del proprio orientamento globale verso il mondo, è la misura in cui si percepisce la vita come comprensibile, gestibile, e significativa. Il *Sence of Coherence* è stato proposto come fattore psicologico predittivo di buona salute ed adattamento positivo.

Numerose ricerche suggeriscono un effetto protettivo del *Sence of Coherence* sulla salute psicologica in circostanze stressanti, tanto da sembrare una risorsa di promozione del benessere che rafforza la resilienza e sviluppa uno stato soggettivo positivo in un'ottica salutogenetica (Eriksson & Lindstrom, 2006).

Tale risorsa consiste nella capacità di comprendere, rielaborare e superare le sfide della vita quotidiana, utilizzando strategie di resistenza a fattori di stress ("Risorse Generali di Resistenza"). Il senso di coerenza infatti si basa sulla teoria salutogenica di Antonovsky (1987, 1993) in cui sono stati considerati fattori di rischio e di protezione qualitativamente e dimensionalmente diversi. In origine, Antonovsky volle progettare uno strumento di 29 item per misurare il *Sence of Coherence* ed ipotizzò che la scala SOC misurasse almeno 3 fattori di protezione e costituisse un fattore globale salutogenico.

I fattori del *Sence of Coherence* in questione sono:

- 1) il senso di comprensibilità (*understandability*), si riferisce alla possibilità di capire ciò che accade nel proprio ambiente e di riordinare gli elementi in un determinato quadro familiare, sociale, ideologico. Si tratta di una capacità prevalentemente cognitiva;

2) il senso di fronteggiabilità (*manageability*), la sensazione di poter esercitare un certo controllo sugli eventi o nelle situazioni difficili. Essa è strettamente collegata alla consapevolezza di possedere le risorse interne o esterne per affrontare gli eventi ed è fortemente legata all'autostima;

3) il senso di significatività (*meaningfulness*), scaturisce dalle due facoltà prima esposte, include l'esperienza di vita personale e spesso anche una visione di insieme più estesa. Trovare un significato che vada al di là degli aspetti puramente contingenti rappresenterebbe una fonte di motivazione per affrontare la vita e dedicarsi ai propri progetti.

La versione della scala SOC utilizzata nella presente ricerca è una versione semplificata di soli 3 item della scala SOC originaria, il *Brief Assessment of Sense of Coherence* (BASOC) (Schumann, Hapke, Meyer, Rumpf, & John, 2003). I 3 item della scala misurano rispettivamente comprensibilità, fronteggiabilità e significatività. Il punteggio di ciascun item è rappresentato da una scala Likert che va da 0 a 2 e il punteggio globale è pertanto compreso tra 0 e 6. Per permettere una migliore comprensione degli item della BASOC, si riporta qui di seguito una tabella esplicativa della scala (Tab. 2.3.1).

Tabella 2.3.1. Brief Assessment of Sense of Coherence

Nome item	Testo	Dimensione valutata
SOC C	Le pare, di solito, siano difficili da capire che le cose che le accadono nella sua vita quotidiana?	Comprensibilità
SOC F	Vede, di solito, una soluzione ai problemi e alle difficoltà che altre persone trovano impossibili da risolvere?	Fronteggiabilità
SOC S	Le pare, di solito, che la sua vita quotidiana sia una fonte di soddisfazione personale?	Significatività (attribuzione di senso)
SOC G	Punteggio globale tra 0 e 6	Senso di Coerenza

Nello studio di validazione del BASOC la coerenza interna (Cronbach α) è risultata pari a .71. La validità del BASOC è stata valutata calcolando la correlazione dei suoi indici con quelli della versione originale del questionario a 29 item. Sono emersi buoni livelli di correlazione fra i punteggi totali ($r = .77, p < .001$) ed i punteggi delle sottoscale *comprensibilità* ($r = .76, p < .001$), *fronteggiabilità* ($r = .72, p < .001$) e *significatività* ($r = .71, p < .001$) delle due scale (Schumann, Hapke, Meyer, Rumpf, & John, 2003).

Pearlin & Schooler's Sense of Mastery Scale

Il concetto di *Sense of Mastery* (SOM) fa riferimento all'abilità di gestire efficacemente la propria vita e l'ambiente circostante. Il costrutto appare dimensionalmente correlato alla resilienza e alla psicologia del funzionamento positivo nella sua accezione più ampia.

La *Pearlin & Schooler's Sense of Mastery Scale* è stata originariamente elaborata da Pearlin e Schooler (1978) per valutare la misura in cui il soggetto percepisce le opportunità della vita come sotto il proprio controllo piuttosto che fatalisticamente determinate. Dalla letteratura disponibile emerge che uno scarso senso di padronanza è spesso associato a basso livello di istruzione e disagio psicologico, unitamente a scarso supporto sociale ed eventi di vita negativi (Gadalla, 2009). Il senso di padronanza emerge in numerosi studi come una variabile di forte mediazione tra livello d'istruzione e disagio psicologico, tanto da apparire come uno degli obiettivi più importanti per la promozione della salute mentale soprattutto per i gruppi con basso livello di istruzione (Dalgard et al., 2007).

Lo strumento utilizzato nel presente studio relativamente al SOM è composto da 6 item con risposta su scala Likert da 1 a 7 (1 che corrisponde a “*molto d'accordo*”, 7 corrisponde a “*molto in disaccordo*”) e un item inverso (il numero 6) con punteggio da 7 a 1. Lo scoring della scala si ottiene dalla somma dei punteggi dei singoli item con un punteggio globale compreso tra 7 e 49. Per permettere una migliore comprensione degli item della SOM, si riporta di seguito una tabella esplicativa della scala (Tab. 2.3.2).

Tabella 2.3.2. *Pearlin and Schooler's Sense of Mastery Scale*

Item	Testo	Dimensione valutata
SOM 1	Ho poco controllo sulle cose che mi accadono	Controllo
SOM 2	Non c'è veramente un modo in cui io possa risolvere alcuni dei problemi che ho	Capacità di vedere soluzioni
SOM 3	C'è poco che io possa fare per cambiare molte delle cose importanti della mia vita	Previsione di cambiamento
SOM 4	Spesso mi sento impotente nel confrontarmi con i problemi della vita	Senso di impotenza
SOM 5	Talvolta mi sento che sono "sotto pressione" nella vita	Pressione soggettiva
SOM 6	Quello che accade a me nel futuro dipende soprattutto da me	Controllo
SOM 7	Non posso fare quasi niente di quello che veramente mi propongo di fare	Inadeguatezza
SOM Totale	Punteggio globale tra 7 e 49	Senso di Padronanza

Nonostante lo studio originario del *Pearlin & Schooler's Sense of Mastery Scale* non fornisca dati espliciti sull'affidabilità e la validità della scala, essa ha avuto un ampio utilizzo, è stata tradotta in numerose lingue ed è stata utilizzata in un gran numero di studi che prevedevano misure concorrenti del benessere psicologico (Pearlin & Bierman, 2013).

Short Form (36) Health Survey

The Short Form (36) Health Survey (SF-36) (Ware & Sherbourne, 1992; Apolone, Mosconi, & Ware, 1998) è parte di un progetto più ampio, il Medical Outcome Study (MOS), che ha avuto l'obiettivo di valutare l'effetto dei trattamenti

medici sul benessere e sul funzionamento della popolazione degli Stati Uniti d'America (Stewart et al., 1989). Si tratta di un questionario breve, a 36 item, che valuta lo stato di salute in generale e per questo si presta sia per studi nella popolazione generale che per indagini su patologie specifiche e sui trattamenti.

Il questionario SF-36 può essere completato in circa dieci minuti ed ha un ottimo grado di accettabilità. I 36 item che lo compongono sono valutati in maniera diversa: alcuni sono dicotomici, altri prevedono una risposta su scala Likert a 3, 5 o 6 livelli. Le 36 domande si riferiscono concettualmente a 9 domini principali della salute (Tab.2.3.3). Tutte le domande del questionario SF-36, tranne una, si riferiscono alle 4 settimane precedenti la compilazione del questionario.

Tabella 2.3.3. Dimensioni valutate dall'SF-36

Dimensione	Abbreviazione	Item (N)	Contenuto
Attività fisica	AF	10	Attività impegnative, sport faticosi, attività moderate, attività della vita quotidiana (es. sollevare la borsa della spesa), salire le scale, inginocchiarsi, chinarsi, camminare per distanze moderate, fare il bagno, vestirsi
Ruolo fisico	RF	4	Dover ridurre il tempo dedicato al lavoro, rendere meno di quanto previsto, limitazioni nel lavoro, difficoltà ad eseguire il lavoro
Dolore fisico	DF	2	Intensità, limitazioni nelle attività a causa del dolore

Salute generale	SG	5	Percezione del livello di salute, facilità ad ammalarsi, comparazione della salute a quella degli altri, aspettative sulla propria salute
Vitalità	VT	4	Sentirsi vivace, brillante, pieno di energia, oppure sfinito, stanco
Attività sociali	AS	2	Limitazioni nelle attività sociali, frequenza
Ruolo emotivo	RE	3	Riduzione del tempo dedicato al lavoro, rendere meno sul lavoro, calo della concentrazione
Salute mentale	SM	5	Sentirsi agitato, sentirsi giù, sentirsi calmo e sereno, scoraggiato e triste, sentirsi felice
Cambiamento stato di salute	CS	1	Giudizio sulla salute rispetto ad un anno prima

Il questionario SF-36 ha dimostrato capacità discriminative tra popolazioni con problemi psichiatrici o problemi fisici, e tra popolazioni con problematiche mediche gravi e popolazioni moderatamente malate o sane (Apolone, Mosconi, & Ware, 1998). Gli studi sulle proprietà psicometriche del questionario SF-36 hanno costantemente verificato la presenza di due macro-fattori, costituiti da una componente fisica (che aggrega le scale AF, RF, DF) e da una componente mentale (che aggrega le scale SM, RE, AS) mentre le scale “Vitalità” e “Salute Generale” sembrano collocarsi in entrambe. Nella Tabella 2.3.4 viene mostrato un esempio di item del questionario SF-36, nel caso specifico quello della vitalità (VT) e salute mentale (SM). I punteggi grezzi del questionario SF-36 sono calcolati in modo tale

che a punteggi più alti corrisponda uno stato di salute migliore ed il punteggio viene poi trasformato in una scala da 0 a 100 attraverso la formula:

$$P_{(trasformato)} = \frac{P_{(grezzo)} - \text{Minimo}_{(teorico)}}{\text{Massimo}_{(teorico)} - \text{Minimo}_{(teorico)}} \cdot 100$$

Naturalmente le operazioni di calcolo devono essere effettuate su ogni punteggio individuale e necessitano di un software opportuno.

Tabella 2.3.4. Esempio di item dell'SF-36

Risponda a ciascuna domanda scegliendo la risposta che più si avvicina al suo caso.
 Per quanto tempo nelle ultime 4 settimane si è sentito...
 (Indichi un solo numero per ogni domanda)

	Sempre	Quasi sempre	Molto tempo	Una parte del Tempo	Quasi mai	Mai
a. vivace e brillante?	1	2	3	4	5	6
b. molto agitato?	1	2	3	4	5	6
c. così giù di morale che niente avrebbe potuto tirarla su?	1	2	3	4	5	6
d. calmo e sereno?	1	2	3	4	5	6
e. pieno di energia?	1	2	3	4	5	6
f. scoraggiato e triste?	1	2	3	4	5	6
g. sfinito?	1	2	3	4	5	6
h. felice?	1	2	3	4	5	6
i. stanco?	1	2	3	4	5	6

2.4 Procedura di analisi dei dati

Per l'analisi statistica dei dati è stato utilizzato il software Statistical Package for Social Sciences (SPSS) per Windows (release 20.0, IBM, 2011), tramite il quale sono state svolte le seguenti analisi:

- Analisi descrittiva: frequenze assolute e relative per le variabili categoriali, media \pm deviazione standard (DS) per le variabili continue.
- Analisi di confronto: test *t di Student* (*t*) per campioni indipendenti per il confronto delle medie, test del *Chi-Quadrato di Pearson* (χ^2) per le variabili discrete.
- Analisi della relazione fra variabili: la stima dell'eventuale relazione funzionale tra la presenza/assenza di sclerodermia (variabile dipendente) ed i fattori clinici e psicosociali in studio (variabili indipendenti) è stata valutata attraverso un'analisi di regressione logistica multivariata aggiustata per la presenza di esperienze avverse precoci, diagnosi psichiatriche e terapie psicofarmacologiche in corso. La definizione del modello finale di regressione è stata preceduta da un'analisi esplorativa preliminare in tre fasi:
 1. Ognuna delle variabili indagate (escluse le variabili di appaiamento) è stata identificata come possibile variabile di esito o di aggiustamento ed analizzata come unica variabile indipendente in singole regressioni logistiche binarie aventi come variabile dipendente la presenza/assenza della sclerodermia.
 2. Ognuna delle variabili di esito è stata analizzata singolarmente insieme a tutte le variabili di aggiustamento risultate significative in una regressione logistica binaria avente come variabile dipendente la presenza/assenza di sclerodermia

Le variabili di esito di tipo clinico e quelle di tipo psico-sociale sono state raggruppate e analizzate in due diverse regressioni logistiche binarie aventi la presenza/assenza di sclerodermia come variabile dipendente ed includendo le variabili di aggiustamento.

Capitolo III

Risultati

3.1 Caratteristiche socio-demografiche e cliniche del campione

Il gruppo dei casi è rappresentato da 110 soggetti con diagnosi di sclerodermia secondo i criteri ACR/EULAR (van den Hoogen et al., 2013) e arruolati tra i pazienti afferenti agli ambulatori e al Day Hospital della S.O.D. di Reumatologia dell'A.O.U. Careggi di Firenze. Il gruppo di controllo è composto da 110 soggetti sani selezionati dalla popolazione generale. Casi e controlli sono stati appaiati per sesso, età e livello d'istruzione. L'età media dei soggetti del campione clinico è risultata di 52.1 ± 14.0 anni (con una durata media di malattia di 7.1 ± 9.0 anni) e il genere femminile è risultato predominante (con un rapporto F:M di 6.86:1) (Tab. 3.1.1.).

Il campione di controllo è risultato composto per l'87.3% da soggetti di sesso femminile (96 soggetti) e per il 12.3% da soggetti di sesso maschile (14 soggetti). L'età media del campione di controllo è risultata di 51.9 ± 13.8 anni (Tab. 3.1.1.). Il livello d'istruzione è risultato compreso tra 5 e 22 anni nel gruppo dei casi (con una media di 11.2 ± 4.0 anni di studio) e tra i 5 e i 22 anni nel gruppo dei controlli (con una media di 11.2 ± 4.1 anni di studio) (Tab. 4.1.1.). Lo stato civile dei soggetti inclusi nello studio è stato valutato in termini di presenza o assenza di un partner. Al gruppo "con partner" appartengono i soggetti con una relazione stabile (i.e., fidanzati, conviventi, coniugati), al gruppo "senza partner" appartengono i soggetti che non hanno una relazione stabile (i.e., single, separati/divorziati, vedovi). Il 71.8% dei casi ed il 60,9% dei controlli presentavano una relazione stabile al momento della valutazione, mentre il 28.2% dei casi ed il 39.1% dei controlli erano single o non avevano una relazione stabile in corso (Tab. 3.1.1.). Non sono emerse differenze statisticamente significative per quanto riguarda lo stato civile nelle analisi di

confronto fra casi e controlli (Tab. 3.1.1.). L'occupazione dei soggetti inclusi nello studio è stata valutata in termini di presenza o assenza di un lavoro stabile. Il 98.2% dei casi ed il 94.5% dei controlli erano occupati al momento della valutazione, mentre l'1.8% dei casi ed il 5.5% dei controlli erano disoccupati (Tab. 3.1.1.). Dalle analisi di confronto non è emersa alcuna differenza statisticamente significativa fra i due gruppi (Tab. 3.1.1.).

La presenza o assenza di una patologia psichiatrica concomitante riferita dal partecipante alla ricerca è stata valutata sia nel campione clinico che in quello di controllo. Il 22.7% dei casi ed il 10.9% dei controlli hanno riferito di soffrire di una patologia psichiatrica al momento della valutazione (Tab. 3.1.1.). E' emersa una differenza statisticamente significativa fra i due gruppi in termini di presenza di almeno una patologia psichiatrica in atto con una maggiore prevalenza nei soggetti con sclerodermia rispetto ai controlli (Tab. 3.1.1.). Analogamente, sono emerse differenze statisticamente significative per quanto riguarda l'utilizzo di psicofarmaci nelle analisi di confronto tra pazienti e controlli, con un maggiore utilizzo di psicofarmaci nei casi rispetto ai controlli (Tab. 3.1.1.).

Tabella 3.1.1. Caratteristiche socio-demografiche e cliniche del campione

	Controlli N=110 n (%)	Casi N=110 n (%)	χ^2	<i>gdl</i>	<i>p</i>
Genere femminile	96 (87.3)	96 (87.3)	1.000	1	1.000
Senza partner	43 (39.1)	31 (28.2)	2.932	1	.087
Con lavoro	104 (94.5)	108 (98.2)	2.075	1	.150
Comorbidità psichiatrica in corso	12 (10.9)	25 (22.7)	5.491	1	.019
Trattamento psicofarmacologico in atto	2 (1.8)	12 (10.9)	7.628	1	.006
	Controlli N=110 M ± DS	Casi N=110 M ± DS	t	<i>gdl</i>	<i>p</i>
Età (anni)	51.9 ± 13.8	52.1 ± 14.0	-.126	218	.900
Livello di istruzione (anni di studio)	11.2 ± 4.1	11.2 ± 4.0	-.133	218	.894

3.2 Esperienze avverse precoci

La presenza di esperienze avverse precoci è stata valutata sia nel campione clinico che in quello di controllo. La presenza di almeno un'esperienza avversa precoce, indipendentemente dal tipo, è risultata significativamente superiore nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo (Tab. 3.2.1.). In particolare, una differenza statisticamente significativa è stata riscontrata per le esperienze di perdita della madre e di abuso sessuale, con una maggiore prevalenza di queste nel campione clinico rispetto al gruppo di controllo (Tab. 3.2.1.).

Tabella 3.2.1. Esperienze avverse precoci

Esperienze avverse precoci	Controlli N=110 n (%)	Casi N=110 n (%)	χ^2	gdl	p
Almeno una esperienza avversa	38 (34.5)	62 (56.4)	10.560	1	.001
Perdita della madre	6 (5.5)	15 (13.6)	4.264	1	.039
Perdita del padre	14 (12.7)	21 (19.1)	1.665	1	.197
Separazione dei genitori	7 (6.4)	11 (10.0)	.968	1	.325
Grave malattia nell'infanzia	9 (8.2)	18 (16.4)	3.420	1	.064
Abuso sessuale	1 (0.9)	7 (6.4)	4.670	1	.031
Abuso fisico	0 (0.0)	3 (2.7)	3.041	1	.081

3.3 Psicopatologia

La presenza di disturbi psichiatrici (attuali e/o in anamnesi) nel campione totale è stata indagata mediante l'intervista semi-strutturata Mini-International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I. Plus) (Tab. 3.3.1). La percentuale di soggetti con almeno una diagnosi psichiatrica in corso è risultata significativamente superiore nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo (Tabella 3.3.1).

Le diagnosi di episodio depressivo maggiore attuale, ideazione suicidaria, attacchi di panico paucisintomatici attuali e disturbo d'ansia generalizzata attuale sono risultate significativamente più rappresentate nel campione clinico rispetto a quello di controllo (Tabella 3.3.1).

Tabella 3.3.1. Diagnosi

M.I.N.I. plus	Controlli N=110 n (%)	Casi N=110 n (%)	χ^2	gdl	P
<i>Diagnosi lifetime</i>					
Almeno una diagnosi	29 (26.4)	34 (30.9)	.556	1	.456
Disturbo di panico	4 (3.6)	9 (8.2)	2.044	1	.153
Episodio Depressivo Maggiore	25 (22.7)	23 (20.9)	.107	1	.744
Sindrome psicotica	0 (0.0)	1 (0.9)	1.005	1	.316
<i>Diagnosi attuale</i>					
Almeno una diagnosi	12 (10.9)	25 (22.7)	5.491	1	.019
Episodio Depressivo Maggiore	1 (0.9)	10 (9.1)	7.751	1	.005
Episodio Depressivo Maggiore con manifestazioni melanconiche	0 (0.0)	3 (2.7)	3.041	1	.081
Distimia	0 (0.0)	3 (2.7)	3.041	1	.081
Ideazione suicidaria	0 (0.0)	5 (4.5)	5.116	1	.024
Episodio ipomaniacale	0 (0.0)	2 (1.8)	2.018	1	.155
Episodio maniacale	0 (0.0)	1 (0.9)	1.005	1	.316
Disturbo di panico	8 (7.3)	7 (6.4)	.072	1	.789

Attacchi di panico paucisintomatici	0 (0.0)	6 (5.5)	6.168	1	.013
Agorafobia	2 (1.8)	6 (5.5)	2.075	1	.150
Fobia sociale	0 (0.0)	3 (2.7)	3.041	1	.081
Disturbo ossessivo-compulsivo	0 (0.0)	2 (1.8)	2.018	1	.155
PTSD	0 (0.0)	1 (0.9)	1.005	1	.316
Disturbo dell'umore con manifestazioni psicotiche	0 (0.0)	1 (0.9)	1.005	1	.316
Disturbo d'ansia generalizzata	3 (2.7)	11 (10.0)	4.882	1	.027
Disturbo da somatizzazione	0 (0.0)	1 (0.9)	1.005	1	.316

M.I.N.I.: Mini-International Neuropsychiatric Interview

La presenza di sintomi psichiatrici nel campione totale è stata indagata con il questionario autosomministrato Self-Report Symptom Inventory-Revised (SCL-90-R) (Tab. 3.3.2). Tutti gli indici totali e di sottoscala del SCL-90-R differiscono significativamente tra il campione clinico e di controllo, con punteggi medi significativamente superiori nel campione clinico rispetto a quello di controllo (Tabella 3.3.2).

Tabella 3.3.2. Sintomatologia

SCL-90-R	Campione	N	M	DS	t	gdl	P
GSI	controlli	110	.499	.425	-4.804	218	.000
	casi	110	.813	.538			
PST	controlli	110	26.80	19.686	-4.505	218	.000
	casi	110	38.57	19.072			
PSDI	controlli	110	1.541	.425	-4.354	218	.000
	casi	110	1.816	.509			

Somatizzazione	controlli	110	4.34	4.058	-4.225	218	.000
	casi	110	6.94	5.020			
Osessività-Compulsività	controlli	110	5.71	5.478	-3.871	218	.000
	casi	110	9.06	7.252			
Sensitività interpersonale	controlli	110	3.87	4.509	-3.863	218	.000
	casi	110	6.52	5.509			
Depressione	controlli	110	7.92	7.538	-4.314	218	.000
	casi	110	12.75	8.995			
Ansia	controlli	110	5.23	4.703	-3.119	218	.002
	casi	110	7.60	6.444			
Collera-Ostilità	controlli	110	2.54	2.821	-2.027	218	.044
	casi	110	3.35	3.093			
Ansia fobica	controlli	110	.99	2.101	-3.616	218	.000
	casi	110	2.57	4.078			
Ideazione Paranoide	controlli	110	3.04	3.310	-1.971	218	.049
	casi	110	3.95	3.527			
Psicoticismo	controlli	110	2.34	3.365	-3.846	218	.000
	casi	110	4.39	4.478			

SCL-90-R: Self-Report Symptom Inventory-Revised, GSI: General Symptomatic Index, PST: Positive Symptom Total, PSDI: Positive Symptom Distress Index

3.4 Comportamento di malattia

Dalla somministrazione del questionario Illness Behaviour Inventory (IBI) sono emerse differenze statisticamente significative fra casi e controlli per tutti gli indici forniti dallo strumento (Tab. 3.4.1). In particolare, il campione clinico ha mostrato un maggior comportamento di malattia rispetto ai controlli ed anche una maggior interferenza del comportamento di malattia sull'attività lavorativa e sull'attività sociale (Tab. 3.4.1).

Tabella 3.4.1. Comportamento di malattia

IBI	Campione	N	M	SD	t	gdl	p
Totale	casi	110	61.81	14.254	- 5.759	218	.000
	controlli	110	49.55	17.193			
lavoro	casi	110	29.60	7.232	-4.056	218	.000
	controlli	110	25.05	9.267			
sociale	casi	110	32.21	9.071	-5.910	218	.000
	controlli	110	24.92	9.228			

IBI: Illness Behaviour Inventory

3.5 Resilienza

Il Sense of Coherence (SOC), indagato con il Brief Assessment of Sense of Coherence (BASOC), ed il Sense of Mastery (SOM), indagato con la Pearlin & Schooler's Sense of Mastery scale, sono stati confrontati nel gruppo dei casi ed in quello dei controlli (Tab 3.5.1). Dalle analisi di confronto, i casi hanno mostrato una media significativamente inferiore rispetto ai controlli relativamente al punteggio generale della Sense of Mastery scale. Non è emersa, invece, alcuna differenza statisticamente significativa fra i due gruppi in termini di punteggio generale medio al BASOC (Tab. 3.5.1).

Tabella 3.5.1. Sense of Coherence, Sense of Mastery

	Campione	N	M	DS	t	gdl	p
SOC G	casi	110	3.91	1.231	1.278	218	.203
	controlli	110	4.13	1.300			
SOM G	casi	110	30.15	7.880	2.065	218	.040
	controlli	110	32.45	8.621			

SOC G: punteggio generale del BASOC; SOM G: punteggio generale della Sense of Mastery scale

3.6 Qualità della vita

La percezione soggettiva della qualità della vita dei partecipanti allo studio rispetto ad una serie di aree relative alla propria funzionalità affettiva, sociale e lavorativa, nonché rispetto alla propria salute fisica e psicologica, è stata indagata con il questionario Short Form (36) Health Survey (SF-36).

Per quanto riguarda il confronto fra casi e controlli, i risultati indicano che tutte le aree indagate sono significativamente più compromesse nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo (Tab. 3.6.1).

Tabella 3.6.1. Qualità della vita

SF-36	Campione	N	M	DS	t	gdl	p
attività fisica	controlli	110	89.14	17.595	5.637	218	.000
	casi	110	71.95	26.691			
ruolo fisico	controlli	110	80.32	32.235	4.562	218	.000
	casi	110	57.95	40.059			
dolore fisico	controlli	110	71.24	25.090	4.849	218	.000
	casi	110	54.83	25.100			
salute generale	controlli	110	70.72	19.739	9.275	218	.000
	casi	110	44.49	22.134			
vitalità	controlli	110	59.32	17.681	3.649	218	.000
	casi	110	50.86	16.671			
attività sociali	controlli	110	79.25	20.323	3.392	218	.001
	casi	110	69.74	21.267			
ruolo emotivo	controlli	110	83.99	28.873	5.266	218	.000
	casi	110	59.07	40.355			

salute mentale	controlli	110	69.53	17.744	2.575	218	.011
	casi	110	63.27	18.280			
cambiamento nello stato di salute	controlli	110	52.73	18.345	2.637	218	.009
	casi	110	45.43	22.506			

SF-36: Short Form (36) Health Survey

3.7 Potenziali predittori di sclerodermia

La capacità di predire la presenza/assenza di sclerodermia delle variabili cliniche e dei fattori psicosociali in studio è stata valutata attraverso un'analisi di regressione logistica multivariata nella quale sono state incluse: le sottoscale degli strumenti utilizzati come variabili indipendenti; la presenza di esperienze avverse precoci, diagnosi psichiatriche e terapie psicofarmacologiche in corso come variabili di aggiustamento; la presenza/assenza di sclerodermia come variabile dipendente (Tab. 3.7.1).

Sono risultati predittori significativi di presenza/assenza di sclerodermia:

- la sottoscala “ideazione paranoide” del questionario SCL-90-R che fa riferimento al concetto di comportamento paranoide come espressione di un modo di pensare (pensiero proiettivo, ostilità, sospettosità, grandiosità, riferimento a Sé, paura di perdita dell'autonomia e deliri);
- la sottoscala “lavoro” del questionario IBI che misura l'interferenza del comportamento di malattia (più o meno adattivo) sull'attività lavorativa;
- la sottoscala “salute generale” del questionario SF-36 che misura la valutazione del soggetto rispetto alla propria salute, ivi compresi lo stato attuale, la visione soggettiva e la resistenza alle malattie.

Questi fattori spiegano circa il 38% [$R^2 = .384$] della varianza della presenza/assenza di sclerodermia.

Tabella 3.7.1. Possibili predittori di sclerodermia. Regressione logistica multivariata aggiustata per esperienze avverse precoci, diagnosi psichiatrica in corso, terapia psicofarmacologica.

Variabile	Exp (B)	95% CI	P
SCL-90-R Ossessività-Compulsività	1.050	.949-1.161	.343
SCL-90-R Depressione	.985	.877-1.106	.794
SCL-90-R Ansia	.943	.823-1.081	.405
SCL-90-R Ostilità	1.052	.877-1.263	.584
SCL-90-R SCL-90-R Ansia fobica	.968	.819-1.145	.706
SCL-90-R Ideazione paranoide	.799	.674-.947	.010
SCL-90-R Psicoticismo	1.005	.837-1.205	.961
SCL-90-R Somatizzazione	1.077	.994-1.166	.070
SCL-90-R Sensitività interpersonale	1.143	.967-1.350	.117
IBI lavoro	1.03	1.014-1.115	.012
SOC G	1.128	.787-1.618	.512
SOM G	1.034	.975-1.098	.266
SF-36 attività fisica	1.005	.979-1.031	.717
SF-36 ruolo fisico	1.012	.997-1.027	.116
SF-36 dolore fisico	.996	.977-.1.015	.645
SF-36 salute generale	.940	.916-.964	.000
SF-36 vitalità	1.011	.980-1.044	.486
SF-36 attività sociale	.999	.975-1.024	.923
SF-36 ruolo emotivo	.986	.972-1.001	.065
SF-36 salute mentale	1.013	.980-1.048	.428
SF-36 cambiamento salute	1.001	.982-1.020	.932
$R^2 = .384$ (Cox & Snell), $.512$ (Nagelkerke). Model $\chi^2(24) = 106.717$ $p < .001$			

SCL-90-R: Self-Report Symptom Inventory-Revised, GSI: General Symptomatic Index, PST: Positive Symptom Total, PSDI: Positive Symptom Distress Index, IBI: Illness Behaviour Inventory, SOC G: punteggio generale del BASOC, SOM G: punteggio generale della Sense of Mastery scale, SF-36: Short Form (36) Health Survey

Capitolo IV

Discussione e conclusioni

4.1 Discussione

I risultati riportati in questo elaborato rappresentano il frutto dell'analisi dei dati su un campione di 110 soggetti affetti da sclerodermia e 110 controlli sani selezionati dalla popolazione generale e appaiati per sesso, età e livello d'istruzione. L'obiettivo del presente lavoro è stato indagare le possibili relazioni tra alcuni fattori psicologici di tipo clinico (i.e. sintomi e disturbi psichiatrici) e psicosociale (i.e. esperienze avverse precoci, comportamento di malattia, resilienza, qualità della vita) e la presenza di una patologia grave e cronica come la sclerodermia.

Le analisi effettuate sul campione totale non hanno evidenziato differenze statisticamente significative fra gruppo clinico e di controllo in termini di *sex*, *età* e *livello d'istruzione* come atteso in ragione dell'appaiamento. L'età media dei soggetti del campione clinico e la prevalenza nel genere femminile sono in linea con le attuali evidenze epidemiologiche sulla sclerodermia che riportano un picco di età di insorgenza nella quarta decade di vita ed un rapporto di incidenza fra genere maschile e genere femminile compreso fra l'1:1 e il 14:1 (Chiffot, Fautrel, Sordet, Chatelus, & Sibilia, 2008). Le caratteristiche del campione in termini di *stato civile* e *situazione lavorativa* non hanno mostrato differenze statisticamente significative tra i due gruppi (clinico e di controllo). Ciò rappresenta un aspetto importante in termini di confrontabilità dei due campioni alla luce dell'impatto indipendente che la presenza di una relazione e/o di un'occupazione stabile hanno sul benessere psicofisico e sulla qualità della vita di una persona (Nguyen et al., 2010; Levis et al., 2016).

In questo studio, il 22.7% dei casi ed il 10.9% dei controlli hanno riferito di soffrire di una patologia psichiatrica al momento della valutazione, con una differenza statisticamente significativa in termini di prevalenza di *comorbidità*

psichiatrica fra i due gruppi. Questi risultati sono in linea con i dati disponibili in letteratura che riportano una prevalenza di sintomi e disturbi psichiatrici nella sclerodermia compresa fra il 17% e il 69% (Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Mura, Bhat, Pisano, Licci, & Carta, 2012). Analogamente, sono emerse differenze statisticamente significative per quanto riguarda la presenza di almeno un *trattamento psicofarmacologico in atto* al momento della valutazione nelle analisi di confronto tra casi e controlli, con un maggiore utilizzo di psicofarmaci nei casi rispetto ai controlli.

Poiché, come evidenziato dalla letteratura scientifica, le *esperienze avverse precoci* sembrano rappresentare sia un fattore patogenetico (Chen, Huang, Qiang, Wang, & Han, 2008; De Brouwer et al., 2010) che un fattore patoplastico (Hermann, Scholmerich, & Straub, 2000; Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Stojanovich & Marisavljevich, 2008; Dube et al., 2009; Hassett & Clauw, 2010) della sclerodermia, la loro presenza è stata valutata sia nel campione clinico che in quello di controllo. In questo studio, la presenza di almeno un'esperienza avversa precoce e, in particolare, di esperienze di *perdita della madre* e di *abuso sessuale*, è risultata significativamente superiore nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo. Tali risultati appaiono in linea con quanto riportato in letteratura, ovvero una forte associazione tra *esperienze avverse precoci* e sviluppo di malattia autoimmune in età adulta (Glaser et al., 2004; Stojanovich et al., 2010). In particolare, l'eccesso di esperienze di *perdita della madre* nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo appare in linea con quanto riportato dalla letteratura scientifica (Danese, Pariante, Caspi, Taylor, & Poulton, 2007; Tyrka et al., 2008; Dube et al., 2009), a sottolineare l'importanza del ruolo materno in età evolutiva o, viceversa, la potenziale dannosità della sua perdita sull'individuo. Allo stesso modo, la maggiore prevalenza di esperienze di *abuso sessuale* nel campione clinico rispetto al campione di controllo conferma quanto riportato in letteratura riguardo all'impatto deleterio delle esperienze di abuso nella patogenesi delle malattie autoimmuni e alla loro elevata prevalenza nei soggetti da esse affetti (Castro et al., 2005; Danese et al. 2007; Dube et al., 2009).

In questo studio, la presenza di psicopatologia nel campione è stata valutata sia con un approccio categoriale/qualitativo, mediante la rilevazione di diagnosi

psichiatriche strutturate con l'intervista M.I.N.I. Plus (Scheehan et al., 1994, 1998), sia con un approccio dimensionale/quantitativo, mediante la valutazione di 9 diverse dimensioni sintomatologiche con il questionario SCL-90-R (Derogatis, Lipman, & Covi, 1973).

Nel primo caso, la percentuale di soggetti con *almeno una diagnosi psichiatrica in corso* è risultata significativamente superiore nel gruppo clinico rispetto al gruppo di controllo. Inoltre, le diagnosi di *episodio depressivo maggiore attuale, ideazione suicidaria, attacchi di panico paucisintomatici attuali e disturbo d'ansia generalizzata attuale* sono risultate significativamente più frequenti nel campione clinico rispetto a quello di controllo. Proprio l'eccesso di queste patologie psichiatriche, per le quali la presenza di *stressors* rappresenta un fattore strettamente correlato, sembra confermare il ruolo dello stress nei confronti della vulnerabilità allo sviluppo di patologia autoimmune e psichiatrica (Roca et al., 1996; Heim et al., 2008). Particolarmente interessante è, poi, il confronto fra la frequenza di *episodio depressivo maggiore attuale* rilevata dal presente studio nel gruppo clinico e quella riportata da uno studio simile di Baubet e colleghi (2010) effettuato su un campione di 100 soggetti affetti da sclerodermia (anch'essi valutati con l'intervista M.I.N.I.) che corrispondeva al 19%. L'alta prevalenza dei disturbi dello spettro affettivo e ansioso nei pazienti sclerodermici rilevata nel presente studio è in linea con la letteratura scientifica che riporta come questi pazienti sviluppino spesso sindromi psicopatologiche clinicamente rilevanti, fra le quali le più frequenti sono proprio quelle ansiose (Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Baubet et al., 2010) e depressive (Roca et al., 1996; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Baubet et al., 2010).

Secondo un approccio di indagine più dimensionale/quantitativo, in questo studio, la presenza di sintomi psichiatrici nel campione totale è stata valutata con il questionario SCL-90-R. Tutti gli indici totali e di sottoscala del SCL-90-R differiscono significativamente tra il gruppo dei casi e quello dei controlli, con punteggi medi significativamente superiori nel campione clinico rispetto a quello di controllo in linea con quanto riscontrato in letteratura (Roca et al., 1996; Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Benrud-Larson et al., 2002; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007; Baubet et al., 2010). Tuttavia, è opportuno

sottolineare che alcuni item del questionario SCL-90-R fanno riferimento a sintomi di tipo somatico che potrebbero derivare sia da un quadro psicopatologico che dalla sclerodermia stessa. Tali item comprendono il numero 14 della sottoscala “depressione” (“sentirsi debole o fiacco”), i numeri 17 (“tremori”) e 39 (“palpitazioni o sentirsi il cuore in gola”) della sottoscala “ansia” e soprattutto quelli della sottoscala “somatizzazione” (1. Mal di testa; 4. Sensazione di svenimento o vertigini; 12. Dolori al cuore o al petto; 27. Dolori alla schiena; 40. Senso di nausea o mal di stomaco; 42. Dolori muscolari; 48. Sentirsi senza fiato; 49. Vampate di calore o brividi di freddo; 52. Intorpidimenti o formicolii di alcune parti del corpo; 53. Nodo alla gola; 56. Senso di debolezza in qualche parte del corpo; 58. Senso di pesantezza alle braccia o alle gambe).

In questo studio, la valutazione del comportamento abnorme di malattia in *generale* e in rapporto al *lavoro* e all'*attività sociale* è stata effettuata con il questionario IBI (Turkat e Pettegrew, 1983). Come atteso, il gruppo dei casi ha mostrato un comportamento di malattia più disfunzionale rispetto al gruppo dei controlli ed anche una maggiore interferenza di tale comportamento disadattivo sull'attività lavorativa e sull'attività sociale. Quest'ultimo aspetto, in particolare, può essere legato al timore della valutazione negativa, un elemento in grado di influire sullo sviluppo successivo di depressione e ansia, come descritto in letteratura (Leary et al., 1998). Questi dati appaiono in linea con i recenti e, purtroppo, scarsi studi sull'argomento che hanno evidenziato che il comportamento di malattia svolge un ruolo importante nell'influenzare il benessere ed il funzionamento dei pazienti con sclerodermia (Richards et al., 2003; Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune, 2004; McNearney et al., 2007; Hyphantis et al., 2009; Hudson et al., 2010; Merz et al., 2013, 2014). Ciò sembra dovuto alla peggiore condizione di salute causata da questa patologia, caratterizzata da un lento declino delle normali funzioni fisiologiche che induce, nella vita dell'individuo, la necessità di continui adattamenti e l'insorgenza di numerose disabilità (Cinar et al., 2012; Merz et al., 2013, 2014; Ivarsson, Ekmeahag, Hesselstrand, Rådegran, & Sjöberg, 2014). In linea con la letteratura possiamo ipotizzare che un maggiore comportamento abnorme di malattia possa influenzare anche gli stati depressivi e ansiosi (Fava et al., 1982).

In questo studio, due indicatori delle risorse in termini di resilienza del campione clinico e del campione di controllo sono stati valutati e confrontati: il *senso di coerenza* o sense of coherence (SOC) ed il *senso di padronanza* o sense of mastery (SOM) (Schieman, 2001). Mentre non è emersa alcuna differenza statisticamente significativa fra i due gruppi in termini di *senso di coerenza*, i soggetti affetti da sclerodermia hanno mostrato livelli significativamente inferiori di *senso di padronanza* rispetto ai controlli sani. Il *senso di padronanza* fa riferimento all'abilità di gestire efficacemente la propria vita e l'ambiente circostante (Pearlin & Bierman, 2013). Le persone con basso SOM attribuiscono gli eventi al destino e negano la possibilità di avere un controllo sugli eventi negativi che possono accadergli (Thompson & Spacapan, 1991). Questo potrebbe essere collegato alla particolare situazione che il paziente affetto da sclerodermia si trova a vivere, rispetto all'incertezza della progressione della patologia. L'assenza di padronanza è collegata ad una diminuzione dell'autostima e dell'autoefficacia e di conseguenza del benessere, trattandosi di risorse personali che permettono di gestire i fattori di stress (Thompson & Spacapan, 1991). A differenza delle patologie cardiovascolari e metaboliche (Mausbach et al., 2008), nelle patologie reumatiche autoimmuni questo costrutto è stato scarsamente indagato sebbene, in queste patologie, esso sembri rappresentare una dimensione altamente correlata con il benessere percepito (Abraido-Lanza, Guier, & Revenson, 1996; Ivarsson, Ekmechag, Hesselstrand, Rådegran, & Sjöberg, 2014).

In questo studio, la percezione soggettiva della qualità della vita del campione rispetto ad una serie di aree relative alla propria funzionalità affettiva, sociale e lavorativa, nonché rispetto alla propria salute fisica e psicologica, è stata indagata con il questionario SF-36. I risultati sembrano confermare che il funzionamento fisico e psicosociale dei pazienti con sclerodermia sia fortemente compromesso come evidenziato da precedenti studi (Georges et al., 2006; Hyphantis et al., 2007b; Stamm et al., 2011; Frantz et al., 2016). Nel campione clinico, le aree "*salute generale*" e "*vitalità*" (insieme all'area speciale "*cambiamento dello stato di salute*") sono risultate quelle più compromesse. I risultati indicano, inoltre, che tutte le aree indagate dal questionario SF-36 sono significativamente più compromesse nei casi rispetto ai controlli, con differenze soprattutto nelle aree "*attività fisica*", "*salute*

generale” e “*ruolo emotivo*” che sono in accordo con quanto riportato da precedenti studi (Frantz et al., 2016). Considerando l’alta prevalenza di sintomi depressivi nei pazienti con sclerodermia (Roca et al, 1996; Suarez-Almazor, Kallen, & Roundtree, 2000; Cossutta et al., 2002; Thombs, Taillefer, Hundson, & Baron, 2007) è probabile che vi sia un’associazione tra questi e la compromissione della qualità della vita rilevata in questo studio, come suggerito anche da studi precedenti (Danieli et al., 2005; Hyphantis et al., 2007b).

La stima della relazione funzionale tra la sclerodermia e i principali fattori clinici e psicosociali ad essa correlati è stata valutata attraverso un’analisi di regressione logistica multivariata aggiustata per la presenza di *esperienze avverse precoci*, di *comorbidità psichiatrica* e di *terapia psicofarmacologica* in corso. Poiché fino ad oggi tali dimensioni psicologiche sono state per lo più indagate separatamente (Nguyen et al., 2014; Kwakkenbos et al., 2015; Frantz et al., 2016; Gumuchian et al., 2016; Nakayama et al., 2016), manca una visione complessiva sul loro contributo all’impatto di questa malattia sulla vita paziente. A seguito dell’analisi effettuata in questo studio, i fattori che hanno dimostrato una maggiore relazione con la presenza/assenza di sclerodermia sono:

- *l’ideazione paranoide*, ovvero quella modalità di pensiero caratterizzata da pensiero proiettivo, ostilità, sospettosità, grandiosità, riferimento a Sé, paura di perdita dell’autonomia e deliri;
- *l’interferenza del comportamento anormale di malattia sull’attività lavorativa*;
- la compromissione dello stato di *salute generale*, come percepita dal soggetto, ivi compresi lo stato attuale, la visione soggettiva e la resistenza alle malattie.

Il fatto che, secondo i risultati di questo studio, *l’ideazione paranoide* rappresenti uno dei fattori maggiormente in rapporto con la presenza di sclerodermia sembra confermare quanto emerso in precedenti studi sull’alta prevalenza di aspetti di sensibilità interpersonale, paranoia e locus of control esterno nei pazienti affetti da questa patologia (Westbrook, Gething, & Bradbury, 1987; Malcarne & Greenbergs, 1996; Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001).

L’interferenza del comportamento anormale di malattia sull’attività

lavorativa, valutata con il questionario IBI, mostra che la compromissione dell'attività lavorativa a causa del comportamento da ammalato rappresenta uno dei fattori maggiormente in rapporto con la presenza di sclerodermia e conferma quanto emerso dai precedenti studi sull'argomento che hanno evidenziato come il *comportamento di malattia* svolga un ruolo importante nell'influenzare il benessere ed il funzionamento dei pazienti con sclerodermia (Richards et al., 2003; Richards, Herrick, Griffin, Gwilliam, & Fortune, 2004; McNearney et al., 2007; Hyphantis et al., 2009; Hudson et al., 2010; Merz et al., 2013, 2014). Ciò, come appare ovvio, sembra dovuto alla grave condizione di salute causata da questa patologia, caratterizzata da un lento declino delle normali funzioni fisiologiche che induce, nella vita dell'individuo, la necessità di continui adattamenti e l'insorgenza di numerose disabilità (Cinar et al., 2012; Merz et al., 2013, 2014; Ivarsson, Ekmeahag, Hesselstrand, Rådegran, & Sjöberg, 2014). Tali disabilità sembrano ripercuotersi, in modo particolare, sull'attività lavorativa, con un'azione che sembra in parte mediata da un comportamento di malattia più o meno adattativo (Ouimet, Pope, Gutmanis, & Koval, 2008; Arat et al., 2012; Schouffoer, Schoones, Terwee, & Vliet Vlieland, 2012; Decuman, Smith, Verhaeghe, Van Hecke, & De Keyser, 2014; Decuman, Smith, Gryndonck, De Keyser, & Verhaeghe, 2015; Mattsson et al., 2015).

Un'area della vita quotidiana che appare strettamente correlata all'atteggiamento del paziente rispetto alla propria malattia è quello della *qualità della vita* (Hudson et al., 2010; Merz et al., 2013, 2014; Kwakkenbos et al., 2015; Nakayama et al., 2016). In questo studio, la compromissione dello stato di *salute generale* percepita dal soggetto è espressa nel questionario SF-36, con giudizi negativi rispetto al proprio stato di salute, soprattutto quando confrontato con quello degli altri e con le possibilità di un suo peggioramento. La presenza di questa dimensione della qualità della vita fra i fattori maggiormente in rapporto con la presenza di sclerodermia sottolinea, ancora una volta, quanto evidenziato dalla letteratura scientifica disponibile sulla grave compromissione del benessere fisico e psicosociale di questi pazienti (Haythornthwaite, Heinberg, & McGuire, 2003; Joachim & Acorn, 2003; Thombs et al., 2010; Cinar et al., 2012; Malcarne, Fox, Mills, & Gholizadeh, 2013; Nguyen et al., 2014; Kwakkenbos et al., 2015; Frantz et al., 2016; Gumuchian et al., 2016; Nakayama et al., 2016).

4.2 Limiti dello studio

Un primo limite del presente studio riguarda la scarsa numerosità del campione rispetto all'elevato numero di variabili in studio. E' opportuno tuttavia considerare la bassa incidenza della sclerodermia che, in base alle attuali evidenze epidemiologiche, è considerata una malattia rara. L'ampiamiento del campione in studio, nonché la valutazione di campioni clinici con altre patologie croniche autoimmuni, potrebbe di fatto rappresentare un'interessante prospettiva di ricerca futura.

Un'altro limite del presente studio riguarda la rilevazione delle *esperienze avverse precoci* dei partecipanti: dato il carattere retrospettivo di questa valutazione vi è inevitabilmente un *recall bias* in grado di falsare la veridicità dell'evento o di ricollocarlo in maniera errata in ordine cronologico. In questo senso, un ulteriore limite del presente studio è quello di non aver previsto l'utilizzo di strumenti di screening validati e specifici per la rilevazione dello stress e del trauma in età infantile, per esempio il Childhood Trauma Questionnaire – short form (Bernstein et al., 2003). Nella modalità di rilevazione di questo tipo di esperienze manca, inoltre, la dovuta considerazione dell'interpretazione soggettiva e della reazione individuale all'evento. Il rischio di *recall bias* è tuttavia implicito e difficilmente superabile in questo tipo di ricerca data la necessità di una valutazione retrospettiva di soggetti adulti e la scarsa disponibilità di indicatori oggettivi della presenza di esperienze avverse in età infantile.

Un'altra possibile limitazione è che nell'attuale ricerca non sono stati utilizzati strumenti psicometrici specifici per la misurazione della depressione e dei disturbi d'ansia, ovvero delle patologie maggiormente diffuse nei campioni clinici, così pure del piacere. Sebbene nel presente studio ciò sia stato effettuato per evitare di aggravare l'impegno, già notevole, richiesto ai partecipanti (con il rischio di fenomeni di affaticamento), questo tipo di approfondimento potrebbe rappresentare un'interessante prospettiva di ricerca.

Infine, un potenziale limite dello studio è rappresentato dalla mancata considerazione di eventuali fattori protettivi nei confronti del benessere psicofisico dei partecipanti: livello economico e supporto sociale, per esempio, potrebbero

essere in grado di limitare l'impatto negativo della malattia sulla vita del paziente. Tale limite è comunque in parte attenuato dal fatto che i due gruppi sono risultati equivalenti per *livello di istruzione* e vi è un'assenza di differenze statisticamente significative fra i due gruppi in termini di *stato civile e situazione lavorativa*.

4.3 Conclusioni

E' ampiamente dimostrato che il benessere fisico e psicosociale dei pazienti affetti da una patologia grave e cronica come la sclerodermia è gravemente compromesso (Nguyen et al., 2014; Frantz et al., 2016). Nonostante alcuni fattori psicologici di tipo clinico e psicosociale, fra cui le *esperienze avverse precoci*, la *psicopatologia*, il *comportamento di malattia*, la *resilienza* e la *qualità della vita correlata alla salute* siano risultati particolarmente coinvolti nell'impatto globale di questa malattia sulla salute psicofisica del paziente, tali dimensioni psicologiche sono state fin qui indagate separatamente, in assenza di una visione complessiva sull'argomento (Angelopoulos, Drosos, & Moutsopoulos, 2001; Chen, Huang, Qiang, Wang, & Han, 2008; De Brouwer et al., 2010; Merz et al., 2013; Nguyen et al., 2014; Frantz et al., 2016).

Lo scopo del presente elaborato è stato, dunque, quello di indagare i fattori sopracitati in un campione di soggetti affetti da sclerodermia ed approfondire i loro rapporti con la malattia alla luce di un confronto con un campione di soggetti sani. I risultati della presente ricerca indicano che, rispetto ai controlli sani, i soggetti affetti da sclerodermia mostrano una frequenza significativamente superiore di *esperienze avverse precoci* (soprattutto *perdita della madre* e di *abuso sessuale*), di *sintomi e disturbi psichiatrici* (soprattutto *episodio depressivo maggiore*, *attacchi di panico paucisintomatici* e *disturbo d'ansia generalizzata*).

Rispetto ai controlli sani, inoltre, i soggetti affetti da sclerodermia mostrano un *comportamento di malattia* più disfunzionale, un *minor senso di padronanza* rispetto alla propria vita e una *qualità della vita* significativamente più compromessa in tutte le aree della vita quotidiana.

Delle dimensioni psicologiche valutate, quelle che hanno dimostrato una maggiore relazione funzionale con la sclerodermia sono l'*ideazione paranoide*, l'*interferenza del comportamento abnorme di malattia sull'attività lavorativa* e la compromissione dello stato di *salute generale*.

Bibliografia

- Abraido-Lanza, A.F., Guier, C., & Revenson T.A. (1996). Coping and social support resources among Latinas with arthritis. *Arthritis Care & Research*, 9, 501-508.
- Abul, K.A., Lichtman, A.H., & Pillai, H. (2010). *Citochine in Immunologia cellulare e molecolare* (pp. 267- 302). Milano: Elsevier.
- Ambrosi, P., Pavan, F., & Vender, S. (1985). Alcune note sul concetto di life-events. In: De Martis, D., Caverzani, E., Politi, P. L. (Eds.), *Evento e psicosi*. Milano: Franco Angeli.
- Amorim, P., Lecrubier, Y., Weiller, E., Hergueta, T., & Sheehan, D. (1998). DSM-III-R Psychotic Disorders: procedural validity of the Mini International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I.). Concordance and causes of discordance with the CIDI. *European Psychiatry*, 13, 26-34.
- Anaut, M. (2003). *La resilience. Surmontons les traumatismes*. Paris: Nathan.
- Angelopoulos, N.V., Drosos, A.A., & Moutsopoulos, H.M. (2001). Psychiatric symptoms associated with scleroderma. *Psychotherapy & Psychosomatics*, 70, 145-50.
- Antonovsky, A. (1980). *Health, stress and coping*. San Francisco: Jossey Bass.
- Antonovsky, A. (1987). *Unrevealing the mystery of health: How people manage stress and stay well*. San Francisco: Jossey Bass.
- Antonovsky, A. (1993). The structure of the sense of coherence scale. *Social Science & Medicine*, 36, 725-733.
- Apolone, G., Mosconi, P., & Ware, J.E. (1998). The Italian SF-36 Health Survey: translation, validation and norming. *Journal of Clinical Epidemiology*, 51, 1025-1036.
- Arat, S., Verschuere, P., De Langhe, E., Smith, V., Vanthuyne, M., Diya, L., et al. (2012). The association of illness perceptions with physical and mental health in systemic sclerosis patients: an exploratory study. *Musculoskeletal Care*, 10(1), 18-28.
- Artlett, C.M., Smith, J.B., & Jimenez, S.A. (1999). New perspectives on the etiology of systemic sclerosis. *Molecular Med Today*, 5(2), 74-78.

- Baltes, P.B., & Staudinger, U.M. (2000). Wisdom: A metaheuristic (pragmatic) to orchestrate mind and virtue toward excellence. *American Psychological Society*, 55, 122-136.
- Baubet, T., Ranque, B., Taieb, O., Bérezné, A., Bricou, O., Mechallel, S., et al. (2010). Mood and anxiety disorders in systemic sclerosis patients. *La Presse Médicale*, 40,111-119.
- Baumeister, R.F., & Exline, J.J. (2000). Self-control, mortality, and human strength. *Journal of Social and Clinical Psychology*, 19, 29-42.
- Benrud-Larson, L.M., Haythornthwaite, A.J., Heinberg, J.L., Boling, C., Reed, J., White, B., et al. (2002). The impact of pain and symptoms of depression in scleroderma. *Pain*, 95, 267–275.
- Beretta, L., Astori, S., Ferrario, E., Caronni, M., Raimondi, M., & Scorza, R. (2006). Determinants of depression in 111 italian patients with systemic sclerosis. *Reumatismo*, 58(3), 219-225.
- Benard, B. (1991). *Fostering resiliency in kids: Protective factors in the family, school and community*. Portland (OR): Western Center for Drug-Free Schools and Communities.
- Bernstein, D.P., Stein, J.A., Newcomb, M.D., Walker, E., Pogge, D., Ahluvalia, T., et al. (2003). Development and validation of a brief screening version of the Childhood Trauma Questionnaire. *Child Abuse & Neglect*, 27(2), 169-190.
- Bierhaus, A., Wolf, J., Andrassy, M., Rohleder, N., Humpert, P.M., Petrov, D., et al. (2003). A mechanism converting psychosocial stress into mononuclear cell activation. *Proceedings of the National Academy of Sciences of the United States of America*, 100(4), 1920-1925.
- Biondi M. (1991). *La psicosomatica nella pratica clinica.*, Roma: Il Pensiero Scientifico.
- Biondi, M., & Brunetti, G. (1988). Stress emozionale e sistema neuroendocrino. Una rassegna delle ricerche 1980-89. *Medicina Psicosomatica*, 33, 317-332.
- Bronfenbrenner, U. (1979). *Ecologia dello sviluppo umano*. Bologna: Il Mulino.
- Burns, E.T. (1996). *From risk to resilience: A journey with herart for our children, our future*. Dallas (Texas): Marco Polo.

- Buss, D.M. (2000). The evolution of happiness. *American Psychologist*, *55*(1), 15-23.
- Castro, I., Barrantes, F., Tuna, M., Cabrera, G., Garcia, C., Recinos, M., Espinoza, L.R., & Garcia-Kutzback, A. (2005). Prevalence of abuse in Fibromyalgia and other rheumatic disorders at specialized clinic in rheumatic diseases in Guatemala City. *Clinical Rheumatology*, *11*, 140-145.
- Chen, Y., Huang, J., Qiang, Y., Wang, J., & Han, M. (2008). Investigation of stressful life events in patients with systemic sclerosis. *Journal of Zhejiang University*, *9*(11), 853-856.
- Chiffлот, H., Fautrel, B., Sordet, C., Chatelus, E., Sibilia, J. (2008). Incidence and prevalence of systemic sclerosis: a systematic literature review. *Seminars in Arthritis and Rheumatism*, *37*(4), 223-235.
- Chrousos, G.P. (1995). The hypothalamic-pituitary-adrenal axis and immune-mediated inflammation. *The New England Journal of Medicine*, *332*, 1351-1362.
- Cinar, F.I., Unver, V., Yilmaz, S., Cinar, M., Yilmaz, F., Simsek, I., et al. (2012). Living with scleroderma: patients' perspectives, a phenomenological study. *Rheumatology International*, *32*(11), 3573-3579.
- Clark, A., & Friedman, M.J. (1983). Factor structure and discriminant validity of the SCL-90 in veteran psychiatric population. *Journal of Personality Assessment*, *47*, 396.
- Cossutta, R., Zeni, S., Soldi, A., Colombelli, P., Belotti Masserini, A., & Fantini, F. (2002). Evaluation of quality of life in patients with systemic sclerosis by administering the SF-36 questionnaire. *Reumatismo*, *52*, 122-127.
- Craig, T.K., Bialas, I., Hodson, S., & Cox, A.D. (2004). Intergenerational transmission of somatization behaviour: 2. Observations of joint attention and bids for attention. *Psychological Medicine*, *34*(2), 199-209.
- Crepaldi, G., & Baritussio, A. (2002). *Trattato di medicina interna*. Padova: Piccin, Nuova Libbraia.
- Cyrulnik, B. (2000). *Il dolore meraviglioso. Diventare adulti sereni superando i traumi dell'infanzia*. Milano: Frassinelli.
- Cyrulnik, B., & Malaguti, E. (2005). *Costruire la resilienza: La riorganizzazione*

- positiva della vita e la creazione di legami significativi*. Trento: Erikson.
- Dalgard, O.S., Mykletun, A., Rognerud, M., Johansen, R., & Zahl, P.H. (2007). Education, sense of mastery and mental health: results from a nation wide health monitoring study in Norway. *BMC Psychiatry*, 7, 20.
- Damasio, A.R. (1994). *L'errore di cartesio*. Milano: Adelphi.
- Danese, A., Pariante, C.M., Caspi, A., Taylor, A., & Poulton, R. (2007). Childhood maltreatment predicts adult inflammation in a life-course study. *The National Academy of sciences of the USA*, 104, 1319-1324.
- Danieli, E., Airò, P., Bettoni, L., Cinquini, M., Antonioli, C.M., Cavazzana, I., et al. (2005). Health-related quality of life measured by the Short Form 36 (SF-36) in systemic sclerosis: correlations with indexes of disease activity and severity, disability, and depressive symptoms. *Clinical Rheumatology*, 24(1), 48-54.
- Dantzer, R., O'Connor, J.C., Freund, G.G., Johnson, R.W., & Kelley, K.W. (2008). From inflammation to sickness and depression: when the immune system subjugates the brain. *Nature Reviews Neuroscience*, 9(1), 46-56.
- De Brouwer, S.J.M., Kraaimaat, F.W., Sweep, F.C.G.J., Creemers, M.C.W., Radstake, T.R.D.J., Van Laarhoven, A.I.M., et al. (2010). Experimental stress in inflammatory rheumatic diseases: a review of psychophysiological stress. *Arthritis Research & Therapy*, 12, 1-24.
- Decuman, S., Smith, V., Verhaeghe, S.T., Van Hecke, A., & De Keyser, F. (2014). Work participation in patients with systemic sclerosis: a systematic review. *Clinical and Experimental Rheumatology*, 32(6), S206-213.
- Decuman, S., Smith, V., Grypdonck, M., De Keyser, F., & Verhaeghe, S. (2015). Factors influencing the occupational trajectory of patients with systemic sclerosis: a qualitative study. *Clinical and Experimental Rheumatology*, 33(4), S26-30.
- Del Rosso, A., Boldrini, M., D'Agostino D., Placidi, G.P., Scarpato, A., Pignone, A., et al. (2004). Health-related quality of life in systemic sclerosis as measured by the short form 36: relationship with clinical and biological markers. *Arthritis and Rheumatism*, 51, 475-481.
- Del Rosso, A., Mikhaylova, S., Baccini, M., Lupi, I., Matucci Cerinic, M., &

- Maddali Bongi, S. (2013). In systemic sclerosis, anxiety and depression assessed by hospital anxiety depression scale are independently associated with disability and psychological factors. *BioMed Research International*, 507493.
- Derogatis, L.R., Covi, L., Lipman, R.S., Rickels, K. (1970). Dimensions of outpatient neurotic pathology: comparison of a clinical versus an empirical assessment. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, 34(2), 164-171.
- Derk, C.T., & Jimenez, S.A. (2003). Systemic sclerosis: current view of its pathogenesis. *Autoimmunity Reviews*, 2(4), 181-191.
- Derogatis, L.R., Lipman, R.S., & Covi, L. (1973). SCL-90, an outpatient psychiatric rating scale-preliminary report. *Psychopharmacology Bulletin*, 9, 13-28.
- Devoto, G. (1971). *Devoto-oli: Vocabolario della lingua italiana*. Milano: Mondadori.
- Dickens, C., & Creed, F. (2001). The burden of depression in patients with rheumatoid arthritis. *Rheumatology*, 40, 1327-1330.
- Diener, E. (2000). Subjective well-being: The science of happiness and a proposal for a national index. *American Psychologist*, 55(1), 34-43.
- Dinning, W.D., & Evans, R.G. (1977). Discriminant and convergent validity of the SCL-90 in psychiatric inpatients. *Journal of Personality Assessment*, 41, 304.
- Dube, S.R., Fairweather, D., Pearson, W.S., Felitti, V.J., Anda, R.F., & Croft, J.B. (2009). Cumulative childhood stress and autoimmune disease in adults. *Psychosomatic Medicine*, 71, 243-250.
- Elenkov, I.J. (2004). Glucocorticoids and the Th1/Th2 Balance. *New York Academy of Sciences*, 1024, 138-146.
- Emiliani, F. (1995). *Processi di crescita tra protezione e rischio*. In P. Di Blasio (Ed.), *Contesti relazionali e processi di sviluppo* (pp. 45-55). Milano: Cortina.
- Ericksson, M., & Lidstrom, B. (2006). Antonovsky's sense of coherence and the relation with health: a systematic review. *Journal of Epidemiology and*

- Community Health*, 60, 376-381.
- Eriksson, M., Lindström, B., & Lilja, J. (2007). A sense of coherence and health. Salutogenesis in a societal context: Aland a special case? *Journal of Epidemiology and Community Health*, 61, 684-688.
- Fava, G.A., Pilovsky, I., Pierfederici, A., Bernardi, M. & Pathak, D. (1982). Depressive Symptoms and Abnormal Illness Behavior in General Hospital Patients. *General Hospital Psychiatry*, 4, 171-178.
- Feghali-Bostwick, C., Medsger, T.A.Jr., Wright, T.M. (2003). Analysis of systemic sclerosis in twins reveals low concordance for disease and high concordance for the presence of antinuclear antibodies. *Arthritis & Rheumatology*, 48(7), 1956-1963.
- Fergus, S., & Zimmerman, M.A.(2005). Adolescent resilience: a framework for understanding healthy development in the face of risk. *Annual Review of Public Health*, 26, 399-419.
- Ferri, C., Valentini, G., Cozzi, F., Sebastiani, M., Michelassi, C., La Montagna, G., et al. (2007). Systemic Sclerosis: Demographic, Clinical, And Serologic Features And Survival In 1,012 Italian Patients. *Medicine*, 81, 139–153.
- Frantz, C., Avouac, J., Distler, O., Amrouche, F., Godard, D., Kennedy, A.T., et al. (2016) Impaired quality of life in systemic sclerosis and patient perception of the disease: A large international survey. *Seminars in Arthritis and Rheumatism*, 46(1),115-123.
- Frenz, A.W., Carey, M.P., & Jorgensen, R.S. (1993). Psychometric evaluation of Antonovsky's Sense of Coherence Scale. *Psychological Assessment*, 5(2), 145-153.
- Galeazzi, M., Bellisai, F., & Porciello, G. (2000). Sclerosi Sistemica: Epidemiologia e Aspetti Classificativi. *Reumatismo, Giornale ufficiale della Società italiana di Reumatologia*, 52(3), 106-107.
- Gadalla, T.M. (2009a). Determinants, correlates and mediators of psychological distress: a longitudinal study. *Social Science & Medicine*, 68(12), 2199-2205.
- Gadalla, T.M. (2009b). Sense of mastery, social support, and health in elderly Canadians. *Journal of Aging and Health*, 21(4), 581-595

- Garnezy, N. (1991). Resiliency and vulnerability to adverse developmental outcomes associated with poverty. *American Behavioral Scientist*, 34, 416-430.
- Georges, C., Chassany, O., Toledano, C., Mouthon, L., Tiev, K., Meyer, O., et al. (2006). Impact of pain in health related quality of life of patients with systemic sclerosis. *Rheumatology*, 45, 1298-1302.
- Glaser, R. (2005). Stress-associated immune dysregulation and its importance for human health: a personal history of psychoneuroimmunology. *Brain Behavior and Immunity*, 19(1), 3-11.
- Golemati, C.V., Moutsopoulos, H.M., & Vlachoyiannopoulos, P.G. (2013). Psychological characteristics of systemic sclerosis patients and their correlation with major organ involvement and disease activity. *Clinical and experimental rheumatology*, 31(76),37-45.
- Grotberg, E.H. (1995). *A guide to promoting resilience in children: Strengthening the human spirit*. The Hague, Netherlands: The Bernard van Leer Foundation.
- Gumuchian, S.T., Peláez, S., Delisle, V.C., Carrier, M.E., Jewett, L.R., El-Baalbaki, G., et al. (2016). Exploring Sources of Emotional Distress among People Living with Scleroderma: A Focus Group Study. *PLoS One*, 11(3),e0152419.
- Guo, Y., Kuroki, T., & Seiji, Y. (2000). Abnormal illness behavior and psychiatric disorders: a study in an outpatient clinic in Japan. *Psychiatry Clinical Neuroscience*, 54, 447-453.
- Hafner, H., Maurer, K., Loffler, W., Der Heiden, W., Hambrecht, M., & Schultze-Lutter, F. (2003). Modeling the Early Course of Schizophrenia. *Schizophrenia Bulletin*, 29, 325-340.
- Haskett, M.E., Nears, K., Ward, C.S., & McPherson, A.V. (2006). Diversity in adjustment of maltreated children: Factors associated with resilient functioning. *Clinical Psychology Review*, 26, 796–812.
- Hassett, A., & Clauw, D.J. (2010). The role of stress in rheumatic diseases. *Arthritis Research and Therapy*, 12, 123.
- Hawley, D.J., Wolfe, F., & Cathey, M.A. (1992). The sense of coherence

- questionnaire in patients with rheumatic disorders. *Journal of Rheumatology*, 19, 1912-1918.
- Haythornthwaite, J.A., Heinberg, L.J., & McGuire L. (2003). Psychologic factors in scleroderma. *Rheumatic Disease Clinics of North America*, 29(2),427-439.
- Heim, C., Ehlert, U., Hanker, J. P., & Hellhammer, H. D. (1998). Abuse-related post-traumatic stress disorder and alterations of the hypothalamic-pituitary-adrenal axis in women with chronic pelvic pain. *Psychosomatic Medicine*, 60, 309-318.
- Heim, C., Newport, D.J., Heit, S., Graham, Y.P., Wilcox, M., Bonsall, R., et al. (2000). Pituitary-adrenal and autonomic responses to stress in women after sexual and physical abuse in childhood. *Journal of the American Medical Association*, 284, 592-597.
- Hermann, M., Scholmerich, J., & Straub, R.H. (2000). Stress and rheumatic disease. *Rheumatic Diseases Clinic of North America*, 26(4), 737-63.
- Hudson, M., Thombs, B.D., Steele, R., Panopalis, P., Newton, E., Baron, M., et al. (2009). Health-related quality of life in systemic sclerosis: a systematic review. *Arthritis & Rheumatology*, 61(8),1112-1120.
- Hudson, M., Impens, A., Baron, M., Seibold, J.R., Thombs, B.D., Walker, J.G., et al. (2010). Discordance between patient and physician assessments of disease severity in systemic sclerosis. *The Journal of Rheumatology*, 37, 2307-2312.
- Humbert, P., & Aubin, F. (2006). Sclerodermia in Saurat, J., H., Grosshans, E., Laugier, P., & Lachapelle, J.M. *Dermatologia e malattie sessualmente trasmesse* (pp.396-406). Milano: Elsevier.
- Hyphantis, T.N., Tsifetaki, N., Pappa, C., Voulgari, P.V., Sifaka, V., Bai, M., et al. (2007a). Clinical features and personality traits associated with psychological distress in systemic sclerosis patients. *Journal of Psychosomatic Research*, 62,47-56.
- Hyphantis, T. N., Tsifetaki, N., Sifaka, V., Voulgari, P. V., Pappa, C., Bai, M., et al. (2007b). The Impact of Psychological Functioning upon Systemic

- Sclerosis Patients' Quality of Life. *Seminars of Arthritis Rheumatoid*, 37, 81-92.
- Hyphantis, T., Tomenson, B., Paika, V., Almyroudi, A., Pappa, C., Tsifetaki, N., et al. (2009). Somatization is associated with physical health-related quality of life independent of anxiety and depression in cancer, glaucoma and rheumatological disorders. *Quality of Life Research*, 18, 1029-1042.
- Ivarsson, B., Ekmeahag, B., Hesselstrand, R., Rådegran, G., & Sjöberg, T. (2014). Perceptions of Received Information, Social Support, and Coping in Patients with Pulmonary Arterial Hypertension or Chronic Thromboembolic Pulmonary Hypertension. *Clinical Medicine Insights. Circulatory, Respiratory and Pulmonary Medicine*, 8, 21–28.
- Jimenez, S.A., & Christner, P.J. (2004). Animal models of systemic sclerosis: insights into systemic sclerosis pathogenesis and potential therapeutic approaches. *Current Opinion in Rheumatology*, 16(6), 746-52.
- Jimenez, S.A., & Derk, C.T. (2004). Following the molecular pathways toward an understanding of the pathogenesis of systemic sclerosis. *Annals of Internal Medicine*, 140, 37-50.
- Joachim, G., & Acorn, S. (2003). Life with a rare chronic disease: the scleroderma experience. *Journal of Advanced Nursing*, 42(6), 598-606.
- Kempe, R.S., & Kempe, C.H. (1978). Child abuse. Cambridge: Cambridge University Press.
- Klug, W.S., Cummings, M.R., & Spencer, A.C. (2007). Replicazione e ricombinazione del DNA. In *Concetti di Genetica* (pp.287-311). Pearson.
- Kravetz, S., Drory, Y., & Florian, V. (1993). Hardiness and sense of coherence and their relation to negative affect. *European journal of Personality*, 7(4), 233-244.
- Kumpfer, K.L. (1999). *Factors and processes contributing to resilience: The resilience framework*. In M.D. Glantz & J.L. Johnsons (Eds.), *Resilience and development: Positive life adaptation*. New York: Academic/Plenum, pp. 179-224.
- Kuuppelomaki, M., & Utriainen, P. (2003). A 3 year follow-up study of health care students' sense of coherence and related smoking, drinking and

- physical exercise factors. *International Journal of Nursing Studies*, 40, 383-388.
- Kwakkenbos, L., Delisle, V.C., Fox, R.S., Gholizadeh, S., Jewett, L.R., Levis, B., et al. (2015). Psychosocial Aspects of Scleroderma. *Rheumatic Disease Clinics of North America*, 41(3),519-528.
- Lamberg, L. (1996). Treating depression in medical conditions may improve quality of life. *JAMA*, 8, 276-857.
- Lazarus, R.S., & Folkman, S. (1984). *Stress, appraisal, and coping*. New York: Springer.
- Leary, M.R., Rapp, S.R., Herbst, K.C., Exum, M.L., & Feldman, S.R. (1998). Interpersonal concerns and psychological difficulties of psoriasis patients: Effects of disease severity and fear of negative evaluation. *Health Psychology*, 17, 530-536.
- Lecrubier, Y., Sheehan, D., Weiller, E., Amorim, P., Bonora, I., Sheehan, K., et al. (1997). The Mini International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I.). A Short Diagnostic Structured Interview: Reliability and Validity According to the CIDI. *European Psychiatry*, 12, 224-231.
- Leon, L., Abasolo, L., Redondo, M., Perez-Nieto, M.A., Rodriguez-Rodriguez, L., Casado, M.I., et al. (2014). Negative affect in systemic sclerosis. *Rheumatology International*, 34(5),597-604.
- Legendre, C., Allanore, Y., Ferrand, I., & Kahan, A. (2005). Evaluation of depression and anxiety in patients with systemic sclerosis. *Joint Bone Spine*, 72,408-411.
- Le Doux, J.E. (1996). *Il cervello emotivo. Alle origini delle emozioni*. Milano: Baldini & Castodi.
- LeRoy, E.C., Black, C., Fleischmajer, R., Jablonska, S., Krieg, T., Medsger, T., et al. (1988). Scleroderma (systemic sclerosis): classification, subsets, and pathogenesis. *The Journal of Rheumatology*, 15, 202–205.
- Levis, B., Rice, D.B., Kwakkenbos, L., Steele, R.J., Hagedoorn, M., Hudson, M., et al. (2016). Using Marital Status and Continuous Marital Satisfaction Ratings to Predict Depressive Symptoms in Married and Unmarried Women

- With Systemic Sclerosis: A Canadian Scleroderma Research Group Study. *Arthritis Care & Research*, 68(8), 1143-1149.
- Lteif, G.N., & Mavikassalian, M.R. (1995). Life events and panic disorder/agoraphobia. *Comprehensive Psychiatry*, 36(2), 118-122.
- Luthar, S.S., & Ziegler, E. (1991). Vulnerability and competence: A review of research of resilience in childhood. *American Journal of Orthopsychiatry*, 61, 6-22.
- Malaguti, E. (2005). *Educarsi alla resilienza: Come affrontare crisi e difficoltà e migliorarsi*. Trento: Edizioni Erickson.
- Malcarne, V.L., & Greenbergs, H.L. (1996). Psychological adjustment to systemic sclerosis. *Arthritis Care & Research*, 9(1), 51-59.
- Malcarne, V.L., Fox, R.S., Mills, S.D., & Gholizadeh, S. (2013). Psychosocial aspects of systemic sclerosis. *Current Opinion in Rheumatology*, 25(6), 707-713.
- Maricq, H.R., & Valter, I. (2004). A working classification of scleroderma spectrum disorders: a proposal and the results of testing on a sample of patients. *Clinical Express of Rheumatology*, 22(3), S5-S13.
- Maricq, H.R., & Weinrich, M.C. (1988). Diagnosis of Raynaud's phenomenon assisted by color charts. *Journal of Rheumatology*, 15, 454-459.
- Matsuura, E., Ohta, A., Kanegae, F., Haruda, Y., Ushiyama, O., Koarada, S., et al. (2003). Frequency and analysis of factors closely associated with the development of depressive symptoms in patients with scleroderma. *The Journal of Rheumatology*, 30(8), 1782-1787.
- Mattsson, M., Boström, C., Mihai, C., Stöcker, J., Geyh, S., Stummvoll, G., et al. (2015). Personal factors in systemic sclerosis and their coverage by patient-reported outcome measures. A multicentre European qualitative study and literature review. *European Journal of Physical and Rehabilitation Medicine*, 51(4), 405-421.
- Mausbach, B.T., von Kanel, R., Patterson, T.L., Dimsdale, J.E., Depp, C.A., Aschbacher, K., et al. (2008). The moderating effect of personal mastery and the relations between stress and plasminogen activator inhibitor-1 (PAI-1) antigen. *Health Psychology*, 27, 172-179.

- Mayes, M.D. (2003). Scleroderma epidemiology. *Rheumatic Disease Clinics of North America*, 29(2), 239-254.
- McNearney, T.A., Reveille, J.D., Fishback, M., Friedman, A.W., Lisse, J.R., Goel, N., et al. (2007). Pulmonary involvement in systemic sclerosis: associations with genetic, serologic, sociodemographic, and behavioral factors. *Arthritis & Rheumatism*, 57, 318-327.
- Mechanic, D. (1968). *Medical Sociology*. New York: Free Press.
- Mechanic, D. (1995). Sociological Dimensions of Illness Behavior. *Social Science and Medicine*, 41, 1207-1216.
- Mechanic, D., & Volkart, E.H. (1960). Illness behavior and medical diagnosis. *Journal of Health and Human Behavior*, 1, 86-96.
- Meinlschmidt, G., & Heim, C. (2005). Decreased cortisol awakening response after early loss experience. *Psychoneuroendocrinology*, 30(6), 568-76.
- Merz, E.L., Malcarne, V.L., Assassi, S., Nair, D.K., Graham, T.A., Yellman, B.P., et al. (2014). Biopsychosocial typologies of pain in a cohort of patients with systemic sclerosis. *Arthritis Care & Research*, 66(4), 567-574.
- Merz, E.L., Malcarne, V.L., Roesch, S.C., Sharif, R., Harper, B.E., Draeger, H.T., et al. (2013). Measuring illness behavior in patients with systemic sclerosis. *Arthritis Care & Research*, 65(4), 585-593.
- Miller, T.W. (1988). Advances in understanding the impact of stressful life events on health. *Hospital and Community Psychiatry*, 39(6), 615-622.
- Miller, G.E., Chen, E., Fok, A.K., Walker, H., Lim, A., Nicholls, E.F., et al. (2009). Low early-life social class leaves a biological residue manifested by decreased glucocorticoid and increased proinflammatory signaling. *Proceedings of the National Academy of Sciences*, 34, 14716-14721.
- Montecchi, F. (1998). *I maltrattamenti e gli abusi sui bambini. Prevenzione e individuazione precoce*. Milano: Franco Angeli Edizioni.
- Moser, D.K., Clements P.J., & Brecht M.L. (1993). Predictors of psychosocial adjustment in systemic sclerosis. The influence of formal education level, functional ability, hardiness, uncertainty, and social support. *Arthritis and Rheumatism*, 36, 1398-1405.
- Mozzetta, A., Antinone, V., Alfani, S., Neri, P., Foglio Bonda, P.G., Pasquini, P.,

- Puddu, P., & Piccardi, A. (2007). Mental health in patients with systemic sclerosis: a controlled investigation. *Journal of the European Academy of Dermatology and Venereology*, 22, 336-340.
- Mucciarelli, G., Chattat, R., & Celani, G. (2002). La valutazione della qualità della vita. In *Teoria e pratica dei test* (pp. 440-456). Bologna: Piccin.
- Mura, G., Bhat, K. M., Pisano, A., Licci, G., & Carta, M. (2012). Psychiatric Symptoms and Quality of Life in Systemic Sclerosis. *Clinical Practice and Epidemiology in Mental Health*, 8, 30-35.
- Myers, D.G. (2000). The funds, friend, and faith of happy people. *American Psychologist*, 55(1), 56-67.
- Nadashkevich, N., Davis, P., & Fritzler, M.J. (2004). A proposal of criteria for the classification of systemic sclerosis. *Medical Science Monitor*, 10(11), CR615-CR621.
- Nakayama, A., Tunnicliffe, D.J., Thakkar, V., Singh-Grewal, D., O'Neill, S., Craig, J.C., et al. (2016). Patients' Perspectives and Experiences Living with Systemic Sclerosis: A Systematic Review and Thematic Synthesis of Qualitative Studies. *The Journal of Rheumatology*, 43(7), 1363-1375.
- Newman, T., & Blackburn, S. (2002). *Transition in the lives of children and young people: Resilience factors*. Edinburgh: Interchange.
- Nguyen, C., Poiraudau, S., Mestre-Stanislas, C., Rannou, F., Bérezné, A., Papelard, A., et al. (2010). Employment status and socio-economic burden in systemic sclerosis: a cross-sectional survey. *Rheumatology (Oxford)*, 49(5), 982-989.
- Nguyen, C., Ranque, B., Baubet, T., Bérezné, A., Mestre-Stanislas, C., Rannou F, et al. (2014). Clinical, functional and health-related quality of life correlates of clinically significant symptoms of anxiety and depression in patients with systemic sclerosis: a cross-sectional survey. *PLoS One*, 9(2), e90484.
- Ouimet, J.M., Pope, J.E., Gutmanis, I., & Koval, J. (2008). Work disability in scleroderma is greater than in rheumatoid arthritis and is predicted by high HAQ scores. *Open Rheumatology Journal*, 2, 44-52.
- Parsons, T. (1951). *The Social System*. New York: Free Press.

- Pearlin, L.I., & Bierman, A. (2013). Current issues and future directions in research into the stress process. In: Aneshensel CS, Phelan JC, Bierman A, editors. *Handbook of the sociology of mental health*. 2. New York: Springer, pp. 325–340.
- Pearlin, L.I., & Schooler, C. (1978). The structure of coping. *Journal of Health and Social Behavior*, 19, 2-21.
- Peck, J.R., Smith, T.W., Ward, J.R., & Milano, R. (1989). Disability and depression in rheumatoid arthritis. A multi-trait, multi-method investigation. *Arthritis Rheumatoid*, 32(9), 1100-1106.
- Peterson, C. (2000). The future of optimism. *American Psychologist*, 55, 44-55.
- Pilowsky, I. (1971). Dimension of abnormal illness behaviour. *Australian and New Zealand Journal of Psychiatry*, 9, 141-147.
- Pilowsky, I. (1978). A general classification of abnormal illness behaviours. *British Journal of Medical Psychology*, 51, 131-137.
- Pilowsky, I. (1990). The concept of abnormal illness behavior. *Psychosomatics*, 31, 207-213.
- Putton, A., & Fortugno, M. (2006). *Affrontare la vita. Che cos'è la resilienza e come svilupparla*. Roma: Carocci Faber.
- Preti, E., Sarno, I., & Prunas, A. (2010). Proprietà psicometriche della versione italiana dell'SCL-90-R. *Giornale Italiano di Psicopatologia*, 16(S1), 253-254.
- Rannou, F., Poiraudau, S., Berezné, A., Baubet, T., Le-Guern, V., & Cabane, J. (2007). Assessing disability and quality of life in systemic sclerosis construct validities of the Cochin Hand Function Scale, Health Assessment Questionnaire (HAQ) Systemic Sclerosis HAQ, and MOS SF-36. *Arthritis Rheumatoid*, 57, 94-102.
- Richards, H.L., Herrick, A.L., Griffin, K., Gwilliam, P.D.H., & Fortune, D.G. (2004). Psychological adjustment to systemic sclerosis-exploring the association of disease factor, functional ability, body related attitudes and fear of negative evaluation. *Psychologies, Health & Medicine*, 9, 29-39.
- Richards, H.L., Herrick, A.L., Griffin, K., Gwilliam, P.D., Loukes, J., & Fortune, D.G. (2003). Systemic sclerosis: patients' perceptions of their condition.

- Arthritis and Rheumatism*, 49(5), 689-696.
- Richardson, G.E. (2002). The metatheory of resilience and resiliency. *Journal of Clinical Psychology*, 58(3), 307-321.
- Rief, W., Martin, A., Antje Klaiberg, A., & Brähler, E. (2005). Specific Effects of Depression, Panic, and Somatic Symptoms on Illness Behavior. *Psychosomatic Medicine*, 67, 596-601.
- Roca, R.P., Wigley, F.M., & White, B. (1996). Depressive symptoms associated with scleroderma. *Arthritis & Rheumatism*, 39,1035-1040.
- Rutter, M. (1979). *Protective factors in children's responses to stress and disadvantage*. In M. W. Kent & J. E. Rolf (Eds.), *Primary prevention of psychopathology* (Vol. Social Competence in Children, pp. 349-379). Hannover: University press of New England.
- Rutter, M. (1985). Resilience in the face of adversity: Protective factors and resistance to psychiatric disorder. *Britain Journal of Psychiatry*, 147, 598-611.
- Rutter, M. (1987). Psychosocial resilience and protective mechanisms. *American Journal of Orthopsychiatry*, 22, 323-356.
- Rutter, M. (2007). Resilience, competence, and coping. *Child Abuse & Neglect*, 31(3), 205-209.
- Ryan, R.M., & Deci, E.L. (2000). Self-determination theory and the facilitation of intrinsic motivation, social development, and well-being. *American Psychologist*, 55, 68-78.
- Schieman, S. (2001). Age, education and the sense of mastery: A test of the cumulative advantage hypothesis. *Research on Aging*, 32, 153-178.
- Schumann, A., Hapke, U., Meyer, C., Rumpf, H.J., & John, U. (2003). Measuring sense of coherence with only three items: a useful tool for population surveys. *British Journal of Health Psychology*, 8(4), 409-421.
- Seligman, M., & Csikszentmihalyi, M. (2000). Positive psychology: An introduction. *American Psychologist*, 55(1), 5-14.
- Sheehan, D.V., Lecrubier, Y., Janavs, J., Knapp, E., & Weiller, E. (1994). Mini International Neuropsychiatric Interview (MINI). in: University of South

Florida Institute for Research in Psychiatry, Tampa, FL, USA, and INSERM-Hôpital de la Salpêtrière, Paris, France.

- Sheehan, D.V., Lecrubier, Y., Sheehan, H.K., Amorim, P., Janavs, J., Weiller, E., et al. (1998). The Mini-International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I.): the development and validation of a structured diagnostic psychiatric interview for DSM-IV and ICD-10. *Journal of Clinical Psychiatry*, *20*, 22-33.
- Sheehan, D.V., Lecrubier, Y., Sheehan, K., Janavs, J., Weiller, E., Bonora, L.I., et al. (1997). Reliability and Validity of the Mini International Neuropsychiatric Interview (M.I.N.I.): According to the SCID-P. *European Psychiatry*, *12*, 232-241.
- Schouffoer, A.A., Schoones, J.W., Terwee, C.B., & Vliet Vlieland, T.P. (2012). Work status and its determinants among patients with systemic sclerosis: a systematic review. *Rheumatology (Oxford)*, *51*(7), 1304-1314.
- Simon, G., Ormel, J., VonKorff, M., & Barlow, W. (1995). Health care costs associated with depressive and anxiety disorders in primary care. *American Journal of Psychiatry*, *152*, 352–357.
- Simonton, D. K. (2000). Creativity. *American Psychological Society*, *55*(1), 151-158.
- Smoller, J.W., Pollack, M.H., Otto, M.W., Rosenbaum, J.F., Kradin, R.L. (1996). Panic anxiety, dyspnea, and respiratory disease. Theoretical and clinical considerations. *American Journal of Respiratory and Critical Care Medicine*, *154*(1), 6-17.
- Stamm, T.A., Mattsson, M., Mihai, C., Stöcker, J., Binder, A., Bauernfeid, B., et al. (2011). Concepts of functioning and health important to people with systemic sclerosis: a qualitative study in four European countries. *Annals of the Rheumatic Diseases*, *70*, 1074-1079.
- Steen, V.D., & Medsger, T.A. (2000). Severe organ involvement in systemic sclerosis with diffuse scleroderma. *Arthritis Rheumatoid*, *43*(11), 2437-2444.
- Steen, V.D., Powell, D.L., & Medsger, T.A. (1988). Clinical correlations and prognosis based serum autoantibodies in patient with systemic sclerosis.

- Arthritis & Rheumatism*, 31(2), 188-203.
- Stewart, A.L., Greenfield, S., Hays R.D., Wells, K., Rogers, W.H., Berry, S.D., et al. (1989). Functional status and well-being of patients with chronic conditions. *Medical Outcomes Study*, 18, 907-913.
- Stojanovich, L., & Marisavljevich, D. (2008). Stress as a trigger of autoimmune disease. *Autoimmunity Reviews*, 7, 209-213.
- Stojanovich, L. (2010). Stress and autoimmunity. *Autoimmunity Reviews*, 9, 271-276.
- Stuart, S., & Noyes, R.Jr. (1999). Attachment and interpersonal communication in somatization. *Psychosomatics*, 40(1), 34-43.
- Suarez-Almazor, M.E., Kallen, M.A., & Roundtree, A.K. (2007). Disease and symptom burden in systemic sclerosis: a patient perspective. *Journal of Rheumatology*, 34, 1718-1726.
- Suchman, E.A.(1965). Stages of Illness and Medical Care. *Journal of Health and Human Behavior*, 6, 114-128.
- Surtees, P.G., Wainwright, N.W.J., Luben, R., Khaw, K.T., & Day, N.E.(2006). Mastery, sense of coherence, and mortality: evidence of independent associations from the EPIC-Norfolk prospective cohort study. *Health Psychology*, 25,102-110.
- Taylor, S.E. (2006). Management of Chronic Illness. In *Health Psychology* (pp. 270-298). McGraw Hill.
- Taylor, S.E., Aspinwall, L.G. (1990). Psychological aspect of chronic illness. In Veden Boss, G.R., Costa, P.T., *Psychological aspect in serious illness*, Washington: American Psychological Association.
- Taylor, S.E., Creed, F., & Hughes, D. (1997). Relation between psychiatric disorder and abnormal illness behaviour in patients undergoing operations for cervical discectomy. *Journal of Neurology, Neurosurgery, and Psychiatry*, 63, 169-174.
- Thombs, B.D., Taillefer, S.S., Hundson, M., & Baron, M. (2007). Depression in patients with systemic sclerosis: a systemic review of the evidence. *Arthritis & Rheumatism*, 57,1089-1097.
- Thombs, B.D., van Lankveld, W., Bassel, M., Baron, M., Buzza, R., Haslam, S., et

- al. (2010). Psychological health and well-being in systemic sclerosis: State of the science and consensus research agenda. *Arthritis Care & Research (Hoboken)*, *62*(8), 1181-1189.
- Thompson, S.C., & Spacapan, S. (1991). Perceptions of control in vulnerable populations. *Journal of Social Issues*, *47*, 1-21.
- Turkat, I.D., & Pettergew, L.S. (1983). Development and validation of Illness behavior inventory. *Journal of behavioral assessment*, *5*(1), 35-47.
- Tyrka, A.R., Wier, L., Price, L.H., Ross, N., Anderson, G.M., Wilkinson, C.W., et al. (2008). Childhood parental loss and adult hypothalamic-pituitary-adrenal function. *Biological Psychiatry*, *63*, 1147-54.
- van den Hoogen, F., Khanna, D., Fransen, J., Johnson, S.R., Baron, M., Tyndall, A., et al. (2013). 2013 classification criteria for systemic sclerosis: an American college of rheumatology/European league against rheumatism collaborative initiative. *Annals of the Rheumatic Diseases*, *72*(11), 1747-1755.
- van Duijn, H.J., Kuyvenhoven, M.M., Schellevis, F.G., Theo J.M., & Verheij, T.J.M. (2007). Illness behaviour and antibiotic prescription in patients with respiratory tract symptoms. *British Journal of General Practice*, *57*, 561–568.
- Wagnild, G.M., & Young, H.M. (1993). Development and psychometric evaluation of the resilience scale. *Journal of Nursing Measurement*, *1*(2), 165-178.
- Walsh, J.C., Lynch, M., Murphy, A.W., & Daly, K. (2004). Factors influencing the decision to seek treatment for symptoms of acute myocardial infarction: an evaluation of the Self-Regulatory Model of illness behaviour. *Journal of Psychosomatic Research*, *56*, 67-73.
- Ware, J.E., & Sherbourne, C.D. (1992). The MOS 36-item short-form health survey (SF-36) 1: conceptual framework and item selection. *Medical Care*, *30*, 473-483.
- Watson, D., & Fiend, R. (1969). Measurement of social-evaluative anxiety. *Journal of Consulting and Clinical Psychology*, *33*, 448-457.

- Werner, E. (1993). Risk resilience and recovery: Perspectives from the kauai longitudinal study. *Development and Psychopathology*, 5, 503-515.
- Werner, E., & Smith, R.S. (1992). *Overcoming the odds: High risk children for birth to adulthood*. Ithaca (NY): Cornell University Press.
- Werner, E., & Smith, R.S. (2001). *Journeys from childhood to mid-life: risk, resilience and recovery*. Ithaca (NY): Cornell University Press.
- Westbrook, M.T., Gething, L., & Bradbury, B. (1987). Belief in ability to control chronic illness: Associated evaluations and medical experiences. *Australian Psychologist*, 22, 203-218.
- Wigley, F.M. (2002). Raynaud's phenomenon. *New England Journal of Medicine*, 347, 1001-1008.
- Wigley, F.M., & Provost, T. (2001). Scleroderma. In Flynn, J.A., & Provost, T. *Cutaneous medicine: cutaneous manifestations of systemic disease* (pp.104-121). People's Medical Publishing House.
- Windle, G., Bennett, K.M., & Noyes, J. (2011). A methodological review of resilience measurement scales. *Health and Quality of Life Outcomes*, 9, 1-18.
- Zayne, A.S. (1997) Sense of coherence, coping, and adaptation in adult cancer patients. *Dissertation Abstracts International*, 57, 6602-6612.
- Zorrilla, E.P., Luborsky, L., McKay, J.R., Rosenthal, R., Houldin, A., Tax, A., McCorkle, R., Seligman, D.A., & Schmidt, K. (2001). The relationship of depression and stressors to immunological assays: a meta-analytic review. *Brain Behavior and Immunity*, 15(3), 199-226.