



UNIVERSITA' DEGLI STUDI DI TORINO

**Dottorato in Scienze Psicologiche Antropologiche e
dell'Educazione**

XXXII Ciclo

**COSTRUZIONE E VALIDAZIONE DEL MESOTHELIOMA
PSYCHOLOGICAL DISTRESS TOOL (MPDT) ATTRAVERSO UN
MODELLO A EQUAZIONI STRUTTURALI BAYESIANO**

Candidata

Dott.ssa Fanny Guglielmucci

Tutor

Prof.ssa Antonella Granieri

Indice

Introduzione	4
Capitolo 1: Reazioni emotive alla diagnosi di MM.....	7
1.1 Ansia anticipatoria	7
1.2 Shock	7
1.3 Distress emotivo	8
1.4 Vissuto di incertezza, mancanza di controllo, mancanza di speranza	8
1.5 Isolamento sociale	9
1.6 Meccanismi di fronteggiamento della malattia	9
1.7 Sintomatologia ansioso-depressiva e rischio suicidario	11
Capitolo 2: Conseguenze psicologiche durature correlate al MM	12
2.1 Distress emotivo correlato a sintomi fisici	12
2.2 Distress iatrogeno legato alle modalità di comunicazione e trattamento	13
2.3 Paura della morte	15
2.4 Vissuti depressivi e assenza di speranza.....	15
2.5 La dinamica della colpa/tradimento/lealtà.....	17
2.6 MM come stigma.....	18
2.7 Modalità di fronteggiamento del distress emotivo correlato al MM.....	18
2.8 Preoccupazione per familiari/caregivers:	19
2.9 Ansia e vissuti post-traumatici	20
Capitolo 3: Revisione sistematica della letteratura.....	21
Studio 1: Analisi tematica delle interviste in profondità ad un campione di malati di MM.....	30
Materiale e metodi	31
Campione.....	48
Procedura	35
Risultati.....	51
Studio 2: Costruzione e validazione preliminare del questionario Mesothelioma Psychological Distress Tool (MPDT).....	43
Fase di costruzione degli item	48
Approccio multi-metodo per valutare la validità di contenuto.....	49
Disegno dello studio	51
Caratteristiche del campione	52
Analisi dei dati.....	53
Risultati del processo di validazione preliminare	56

Conclusioni.....	66
BIBLIOGRAFIA	70
Ringraziamenti.....	83

Introduzione

L'impatto dell'asbesto sulla salute è oggetto di numerosi studi. Recentemente, Furuya e collaboratori (2018) hanno sottolineato le vaste dimensioni del fenomeno rappresentato dalle patologie asbesto-correlate, evidenziando una stima di 255.000 morti/anno correlate all'esposizione all'asbesto, di cui 233.000 derivanti da un'esposizione lavoro-correlata. L'esposizione ad amianto sul luogo di lavoro è attualmente considerata una delle principali cause di morte lavoro-correlata, con oltre la metà dei decessi imputabile a patologie oncologiche, tra cui il mesotelioma maligno (MM) (Rong et al., 2015). Il MM è una rara forma di neoplasia causata dall'inalazione di fibre ad asbesto, fortemente aggressiva e letale, caratterizzata da un periodo di latenza che varia tra i 20 e i 40 anni dall'esposizione (NCI, 1980).

I dati nazionali forniti dal VI Rapporto del Registro Nazionale dei Mesoteliomi (ReNaM), riguardanti 27.356 casi di MM diagnosticati tra 1993 e il 2015, rilevano una età media di 70 anni (DS =10,6) al momento della diagnosi senza differenze apprezzabili di genere, una latenza mediana di 48 anni (range: 4 - 85 anni; DS = 11,4), con una mediana di sopravvivenza 9,8 mesi, un rapporto di genere di 2.5 (M/F), e una grande variabilità nel territorio nazionale (maggiore incidenza nelle regioni settentrionali). Le stime riportano che il 70% dei casi derivi da un'esposizione lavoro-correlata e che oltre il 90% dei mesoteliomi registrati interessa la pleura (i.e. mesotelioma pleurico maligno – MPM), con un tasso standardizzato (casi per 100.000 residenti) di incidenza nel 2014 di 3,26 negli uomini e 0,87 nelle donne, e una stima del 20% circa inferiore se si considerano i soli casi di mesotelioma maligno “certo” (escludendo quindi i mesoteliomi “possibili” e “probabili”) (Marinaccio et al., 2018).

I pazienti affetti da MM affrontano numerose sfide, sia fisiche sia psicologiche, principalmente collegate alla ridotta aspettativa di vita, all'assenza di trattamenti efficaci, all'assenza di informazioni chiare ed esaustive circa i trattamenti terapeutici disponibili, e all'ingente quantità di informazioni negative circa la loro condizione clinica (Arber & Spencer, 2012; Girgis et al., 2019; Warby et al., 2019). La ricerca psicologica ha evidenziato la presenza di vissuti ansioso-depressivi, accompagnati da senso di impotenza, assenza di speranza, vissuto di esclusione, paura e rabbia (Clayson et al., 2005; Granieri et al., 2013; Guglielmucci et al., 2015, 2018a,b). Una recente review della

letteratura ha rilevato come i vissuti di impotenza e mancanza di aiuto siano maggiormente pervasivi nei pazienti affetti da MM rispetto ad altri pazienti oncologici, che sembrano invece possedere un maggior senso di speranza e fiducia, probabilmente connesso alla possibilità di poter beneficiare di opzioni terapeutiche più efficaci (Ball et al., 2016).

Accanto alla sintomatologia depressiva, l'esposizione ad amianto è stata estensivamente correlata all'insorgenza di vissuti post-traumatici (Dooley et al., 2010; Moore et al., 2010; Ball et al., 2016; Bonafede et al., 2018, 2020), che sembrano essere una reazione comune per i malati di MM probabilmente correlata alla consapevolezza e alla paura di una morte imminente (Chapple, 2004; Barak et al., 1998; Bonafede et al., 2018).

Precedenti studi hanno associato a questi stati emotivi disturbanti un frequente profondo senso di ingiustizia e di tradimento nei confronti di aziende e istituzioni che hanno consentito l'esposizione del lavoratore all'asbesto (Guglielmucci et al., 2014; Ball et al., 2016; Guglielmucci, 2016), correlato spesso alle estenuanti battaglie legali intraprese per il riconoscimento del danno subito e alla responsabilità di una «terza parte» che ha concretamente causato l'insorgenza della malattia (i.e. fabbriche, policy makers, ecc.). (Hughes & Arber, 2008).

Da un punto di vista psicologico-clinico, questi aspetti rappresentano variabili specifiche non riscontrabili in altre patologie tumorali (e.g. cancro al polmone). L'ipotesi che si tratti di un peculiare quadro di sofferenza psichica, differente rispetto ad altre patologie oncologiche, è sostenuta da numerose ricerche che hanno evidenziato il ruolo giocato dalla dimensione lavorativa non solo nell'eziologia del mesotelioma (Asparouhov & Muthén, 2010), ma anche nel distress emotivo correlato a questa neoplasia (Ball et al., 2016).

Le linee guida e le indicazioni operative delle associazioni scientifiche nazionali ed internazionali (Van Zandwijk et al., 2013; Novello et al., 2016) evidenziano l'importanza della valutazione dei bisogni psicologici dei pazienti con MM: per questi pazienti è raccomandato un approccio multidisciplinare, che includa una presa in carico psicologica per sé e le proprie famiglie. Tuttavia, nonostante l'unicità di questa neoplasia, sono ancora

poche le ricerche sui risvolti psicologici del MM e a tutt'oggi non esistono specifici strumenti in grado di rilevare e quantificare l'intensità di tali vissuti (Dooley et al., 2010).

A partire da queste constatazioni è nata l'esigenza di predisporre strumenti specifici per la popolazione dei pazienti affetti da MM, in grado di valutare il loro disagio psichico e i loro bisogni in modo discriminante rispetto al campo oncologico generale. A tale scopo è nato il presente studio, facente parte del programma BRIC (Bando Ricerche in Collaborazione) 2016/2018, ID 59/2016 "*Accesso al trattamento, supporto psicologico e monitoraggio epidemiologico delle patologie legate all'amianto in Italia*", con lo specifico obiettivo di sviluppare un questionario breve e self-report per la rilevazione della sofferenza psicologica che caratterizza questa popolazione target.

La costruzione del questionario Mesothelioma Psychological Distress Tool (MPDT) ha seguito un processo multi-metodo che ha integrato i risultati emersi da una review sistematica della letteratura, con quelli relativi all'indagine qualitativa delle interviste in profondità condotte a un campione di malati di MM e caregivers (Studio 1). Tale processo ha consentito una maggiore e più profonda comprensione del fenomeno e ha portato all'identificazione dei principali costrutti che identificano il distress emotivo di questa popolazione target. Durante questa fase, si è scelto di dare particolare rilievo alla validità di contenuto e di faccia del questionario, punto di partenza imprescindibile nella costruzione di nuove scale di misurazione, spesso trascurato dai ricercatori (Ziegler, 2014; Chiorri, 2011). L'indagine della validità di contenuto e di faccia è avvenuta attraverso un disegno misto che ha previsto approcci quantitativi (i.e. checklist di rilevanza) e qualitativi (i.e. focus group). La valutazione delle qualità psicometriche del questionario (item analysis, attendibilità, fit del modello) è stata testata attraverso uno studio multi-centrico su un campione di 149 soggetti attraverso l'utilizzo di un modello a equazioni strutturali di tipo bayesiano (BSEM) (Studio 2).

Capitolo 1: Reazioni emotive alla diagnosi di MM

La diagnosi di MM rappresenta un evento traumatico altamente destabilizzante per le famiglie che la ricevono. Le reazioni emotive correlate al MM sembrano seguire una traiettoria specifica e dipendere dalla specifica fase della patologia. Per questa ragione si è scelto di suddividere le principali evidenze presenti in letteratura in relazione alle diverse fasi della patologia. In questo capitolo verranno descritte le reazioni emotive che caratterizzano i primi mesi susseguenti la diagnosi.

1.1 Ansia anticipatoria

Secondo Clayson (2007) esistono due forme di ansia anticipatoria correlata alla diagnosi di MM: una forma pre-diagnosi e una post-diagnosi. Mentre la prima caratterizza una fase preliminare alla comunicazione della diagnosi di MM, in cui i pazienti soffrono dal punto di vista psichico ed emotivo nell'attesa di un responso dai medici; la seconda forma di ansia anticipatoria emerge dopo la comunicazione della diagnosi e consiste in una forte angoscia che il malato sperimenta pensando a ciò che dovrà affrontare in futuro a causa del progredire della sua malattia (i.e. forti dolori, difficoltà respiratorie, etc.) (Clayson 2007).

La review sistematica della letteratura di Ball et al. (2016) ha evidenziato come taluni soggetti affetti da MM soffrano di ansia anticipatoria: un'ansia che spesso deriva dalla conoscenza di colleghi e amici malati, in seguito a un'elevata esposizione ad asbesto. Lo studio di Clayson (2007) riporta nei soggetti affetti da MM la presenza di vissuti ansiosi successivi definita dagli autori come "Sindrome di Damocle": uno stato ansioso caratterizzato da frequenti pensieri e paure di morire.

1.2 Shock

Secondo Arber e Spencer (2012) i primi mesi che seguono la diagnosi di MM rappresentano un periodo altamente destabilizzante per il soggetto, caratterizzato da incertezza, intense sollecitazioni emotive e manifestazioni di shock in relazione alla diagnosi. La diagnosi di MM è spesso inaspettata e questo sembra contribuire alla reazione di shock sperimentata da malati e loro caregivers (Guji, 2005; Moore et al., 2008, 2010; Nagamatsu et al., 2019; Girgis et al., 2019). Shock e sgomento sembrano essere le

prime reazioni emotive riscontrate nei malati di MM, che possono portare a loro volta ansia, depressione, rabbia e difficoltà cognitive e sociali (Bonafede et al., 2018; Taylor et al., 2019). Nel ricevere la diagnosi di MM taluni soggetti possono sentirsi paralizzati e sopraffatti dalla grande quantità di improvvisi notizie e vissuti traumatici sperimentati (Clayson, et al., 2005). Nonostante la presenza diffusa di informative riguardo la pericolosità delle malattie asbesto-correlate (Lee et al., 2009) sono state riscontrate le suddette sensazioni di grande shock. È stato ipotizzato che le reazioni di shock che seguono la comunicazione della diagnosi di MM potrebbero dipendere dal lungo periodo di latenza tra esposizione ad asbesto e eziologia della malattia, che porterebbe il soggetto a dimenticare di essere stato esposto ad asbesto o a credere che non ci sia connessione causale tra i due accadimenti (Clayson, 2003; 2005).

1.3 Distress emotivo

Numerose ricerche hanno evidenziato come la diagnosi di MM sia associata ad alti livelli di distress emotivo (Moore et al., 2008; Arber & Spencer, 2012; Taylor et al., 2019), spesso dovuto alla presenza di diagnosi tardive (Ball et al., 2016). Secondo Girgis et al. (2019) è comune riscontrare sentimenti di stress e rabbia in questi soggetti come reazione alla diagnosi. Kozlowski et al. (2014) sottolineano come sia possibile riscontrare intensi vissuti di stress psicosociale già nel primo mese dopo la diagnosi, evidenziano come in taluni casi l'intensità di tali risulti ancor più invalidante della sintomatologia fisica della malattia.

1.4 Vissuto di incertezza, mancanza di controllo, mancanza di speranza

Nello studio di Arber e Spencer (2012) sembra prevalere nei soggetti affetti da MM un profondo senso di incertezza riguardo alla traiettoria della malattia e dei trattamenti. Lo studio evidenzia inoltre come il vissuto di incertezza nei malati sia associato alla discontinuità dello staff medico e al fallimento delle strategie di controllo della sintomatologia fisica in relazione alla progressione di malattia. Gli autori suggeriscono che tale vissuto risulti maggiormente invalidante nelle prime fasi della malattia subito dopo la diagnosi (Arber & Spencer, 2012).

Il vissuto di incertezza provato dai malati appare connesso non solo al trattamento, ma in generale alla vita futura (Guglielmucci et al., 2018a,b; Sherborne et al., 2020; Buchholz,

2017). I malati appaiono confusi, incerti su che forma prenderà la loro stessa vita da quel momento in poi. È stato ipotizzato, inoltre, che l'assenza di effettivi trattamenti e di linee guida definite e l'impossibilità di poter controllare gli invalidanti sintomi fisici del MM giochino un ruolo centrale nel sostenere queste dinamiche (Clayson et al., 2005). In relazione a ciò la fiducia e la speranza di tali soggetti appare notevolmente compromessa portandoli gradualmente a disinvestire e a perdere la capacità di immaginare e pianificare il proprio futuro (Guglielmucci et al., 2014; Granieri et al., 2013).

1.5 Isolamento sociale

La diagnosi di MM compromette profondamente i legami sociali e la qualità delle relazioni familiari. Spesso si assiste all'interno delle famiglie colpite da questa neoplasia all'instaurarsi di dinamiche relazionali caratterizzate da aggressività e ritiro sociale (Guglielmucci, 2016; Guglielmucci et al., 2018a,b). Dal momento della diagnosi i soggetti tendono a "ripiegarsi" sul ruolo di malato, perdendo poco a poco il ruolo che prima occupavano all'interno della famiglia. Si assiste così a un progressivo restringimento della loro vita sociale, che appare intimamente connesso alle invalidanti cure mediche cui via via si sottopongono (i.e. chirurgiche, chemioterapiche) e a uno scarso supporto sociale (Kozlowski et al., 2014). Essi tendono a diminuire le attività svolte in modo preventivo al fine di evitare gli affanni che la patologia comporta (Kozlowski et al., 2014). Se questa strategia da un lato protegge la persona da un punto di vista fisico, dall'altro riveste molteplici ricadute negative dal punto di vista psicologico e sociale, contribuendo a instaurare e mantenere un'immagine di sé negativa e sentimenti di isolamento sociale (Arber & Spencer, 2012).

1.6 Meccanismi di fronteggiamento della malattia

Al fine di affrontare e gestire le emozioni dolorose derivanti da esperienze traumatiche o stressanti gli individui utilizzano processi consapevoli e intenzionali (coping) e non consapevoli non-intenzionali (meccanismi di difesa) che possono risultare nel tempo più o meno adattivi (Cramer, 1998). Due recenti revisioni della letteratura evidenziano un maggior utilizzo da parte dei malati di MM di strategie di fronteggiamento di tipo disadattivo (Sherborne et al., 2020; Bonafede et al., 2018). In particolare, le ricerche condotte sembrano concentrarsi maggiormente sui processi cognitivi e comportamentali

volti a evitare, negare e minimizzare i pericoli di salute e le emozioni dolorose correlate al MM. Le indagini psicoanalitiche condotte attraverso interviste semi-strutturate in profondità riportate nello Studio 1 appaiono in linea con la letteratura precedente, evidenziando la tendenza ad allontanare dalla consapevolezza le emozioni negative connesse alla malattia e “non pensare” alla morte (Guglielmucci et al., 2018a,b). Analogamente, lo studio condotto da Arber e Spencer (2012) ha rilevato nel periodo immediatamente seguente alla comunicazione della diagnosi un atteggiamento da “testa dentro la sabbia”, volto a evitare di prendere coscienza della situazione e a negare momentaneamente l’impatto psicologico della diagnosi. Occorre ricordare, però, che un corposo numero di ricerche evidenzia il ruolo disadattivo di tali strategie nel tempo: se da un lato esse consentono al soggetto di allontanare momentaneamente dalla consapevolezza i vissuti emotivi traumatici connessi alla malattia ottenendo così un sollievo momentaneo, dall’altro continuare nel tempo a minimizzare e negare l’impatto emotivo della malattia è stato significativamente associato al mantenimento di sintomi post-traumatici (Foa & Kozak, 1986) e all’incremento della loro intensità (Pineles et al., 2011). Risultati simili sono emersi dal lavoro di Bonafede et. al (2020) condotto su un campione di 208 malati di MM e loro caregivers, che evidenzia come il ricorso massiccio a strategie di coping di evitamento aumenti di oltre 3 volte il rischio di sviluppare sintomi post-traumatici¹. Solo poche ricerche si sono concentrate su risposte maggiormente adattive attivate dai malati durante la malattia. Gli studi di Clayson et al. (2005, 2007)² mettono un atteggiamento stoico positivo nell’affrontare la malattia e la morte basato su autocontrollo, razionalità e regolazione delle emozioni; mentre lo studio di Walker et al. (2019) riporta risultati contrastanti con la letteratura evidenziano un atteggiamento di Speranza e ottimismo verso il futuro.

¹ Lo studio, inoltre, mette in luce due dati particolarmente significativi: 1) in presenza di una contaminazione massiccia e comunitaria l’adattamento alla patologia oncologica dipenderebbe maggiormente da strategie di tipo inconsapevole e non intenzionalmente attivate dai soggetti, piuttosto che da strategie di tipo cognitivo e comportamentale attivate consapevolmente; 2) indipendentemente dalla condizione medica (malato vs sano) il maggior utilizzo di meccanismi di difesa orientati alla sublimazione protegge dal rischio di sviluppare depressione (Bonafede et al., 2020).

² Clayson et al. (2005, 2007)² riportano reazioni stoiche, sia in termini positivi sia in termini negativi (i.e. “fatalismo stoico” come indiscussa accettazione e rassegnazione passiva oltre il diniego).

1.7 Sintomatologia ansioso-depressiva e rischio suicidario

Taylor et al. (2019) riportano come lo shock di ricevere una diagnosi di MM possa portare a sviluppare già nei primi mesi dopo la diagnosi ansia e depressione. Come abbiamo già avuto modo di sottolineare, la diagnosi di MM è spesso associata all'emergere di diverse reazioni emotive negative, quali intensa angoscia, assenza di speranza verso il futuro e paura di morire. Tali elementi possono avere un ruolo nell'ideazione suicidaria. Lo studio di Henson et al. (2019), per esempio, condotto sull'intera popolazione inglese deceduta a causa di suicidio dopo una diagnosi di cancro, ha evidenziato nei pazienti con MM il rischio più alto suicidario, suggerendo l'importanza di non sottovalutare la presenza di ansia e depressione in questi soggetti, di fornire supporto psicologico e effettuare uno screening per il suicidio subito dopo la diagnosi (Henson et al., 2019).

Capitolo 2: Conseguenze psicologiche durature correlate al MM

Come sottolineano Clayson et al. (2005) dopo la comunicazione della diagnosi i malati di MM devono rivedere le aspettative di vita, consapevoli di essere destinati a morire in un breve lasso di tempo. I sintomi acquistano differenti significati lungo la traiettoria di malattia, andando di pari passo con una maggiore conoscenza e progressiva alterazione del funzionamento fisico (Clayson 2007).

In questo capitolo verranno descritti i vissuti emotivi che i malati di MM attraversano in un periodo più avanzato della loro malattia. In questa fase – che possiamo definire “centrale” – il soggetto comincia gradatamente a prendere consapevolezza della situazione, a riorganizzare le sue risorse interne per affrontare in modo più adattivo i cambiamenti connessi alla patologia e a risignificare l’esperienza di malattia e la sua intera esistenza (per un approfondimento sul processo di adattamento psicologico dei pazienti malati di cancro si rimanda il lettore alla teoria stadiale proposta da Cullberg, 1975). I pazienti si ritrovano allora a fare i conti con le conseguenze delle cure mediche intraprese (i.e. chirurgia, chemioterapia, eventuali cure palliative), con i loro effetti collaterali, spesso devastanti da un punto di vista fisico, e con eventuali altre forme di intervento (i.e gruppi di auto-aiuto, supporto psicologico-sociale).

2.1 Distress emotivo correlato a sintomi fisici

I sintomi fisici del MM sono generalmente molto intensi e debilitanti, e includono dolore al petto, dispnea, affanno e stanchezza. Hughes & Arber. (2008) affermano che la sintomatologia fisica del MM sia maggiormente invalidante rispetto a quella che caratterizza altre patologie oncologiche; evidenziando un elevato livello di frustrazione e distress emotivo in tutti i pazienti intervistati come reazione ai sintomi fisici. In particolare, gli autori sottolineano che l’entità della sintomatologia fisica riveste importanti ripercussioni sull’autonomia dei pazienti che in poco tempo si ritrovano a dover dipendere in toto dai loro familiari. Inoltre, essi evidenziano come tali sintomi impediscano ai malati di lavorare, causando - come conseguenza - una perdita parziale del loro senso di identità. Numerose ricerche evidenziano come i sintomi invalidanti che accompagnano la progressione di malattia portino i malati a esperire una nuova e peggiore condizione fisica, obbligandoli a fare i conti costantemente con un corpo debole e

gravemente malato (Moore et al., 2010; Bonafede et al., 2018; Guglielmucci et al., 2018a). Dispnea, dolore, perdita di appetito e debolezza sono tra i sintomi fisici più comuni nei pazienti affetti da MM, essi rappresentano una intensa fonte di stress per i malati (Clayson et al., 2005; Mercadante et al., 2016), capaci di attivare in loro vissuti ansiosi connessi all'idea di morte (Clayson, 2007; Granieri, 2008, 2013). L'impatto emotivo negativo dei sintomi fisici del MM, dunque, sembra essere particolarmente traumatico non solo a causa delle limitazioni che essi hanno sul ruolo sociale del malato e sul suo livello di autonomia, ma anche a causa della loro intensità e velocità di insorgenza e della loro significatività come marker di progressione di malattia e morte (Ball et al., 2016). Dooley et al. (2010) riferendosi a pazienti affetti da cancro al polmone affermano come la percezione costante di sintomi fisici, vissuti come rimando continuo a morte imminente, possano produrre pensieri intrusivi di morte, causando così un ulteriore aumento di distress psicologico. La rapida e imprevedibile comparsa dei sintomi fisici, unita alla loro gravità e alla consapevolezza dell'origine "innaturale" della malattia, produce elevati livelli di distress in soggetti affetti da MM (Bonafede et al., 2018). Da un punto di vista clinico, occorre considerare attentamente i risvolti psicologici della malattia in relazione ai sintomi fisici poiché la letteratura sembra concorde nell'affermare che esiste un legame diretto tra progressione dei sintomi fisici e incremento del distress emotivo percepito dai malati.

2.2 Distress iatrogeno legato alle modalità di comunicazione e trattamento

Recentemente, la letteratura ha posto in luce l'esistenza di alcuni ostacoli che possono compromettere la compliance e l'aderenza al trattamento. Warby et al. (2019) hanno individuato i principali ostacoli all'applicazione della chemioterapia in soggetti affetti da MM: 1) età avanzata; 2) "nichilismo clinico", inteso come percezione negativa della chemioterapia e incertezza sui suoi eventuali benefici percepiti come insufficienti; 3) paura degli effetti collaterali; 4) scarsa comunicazione paziente-medico caratterizzata da mancanza di informazioni circa le diverse opzioni terapeutiche possibili e il decorso clinico di malattia; 4) desiderio di "mantenere il controllo"; 5) la volontà di servirsi di medicina alternativa (Warby et al., 2019). Ball et al. (2016), inoltre, rilevano come l'intensità di tali vissuti sia spesso una conseguenza di una comunicazione poco chiara delle possibilità di trattamento, di un servizio di caregiving scoordinato e frammentato e

della mancanza di cura supportiva e cure palliative specialistiche. Clayson (2007) riportano come ricevere informazioni inaccurate, poco chiare o conflittuali da differenti medici comporti per i pazienti affetti da MM un'intensa fonte di stress che li porta gradatamente a perdere fiducia verso i curanti, mentre Girgis et al. (2019) si soffermano sul ruolo controproducente di improntare comunicazioni di malattia basate esclusivamente su dati statistici drammatici. La presenza di modalità comunicative inefficaci è stata oggetto di diversi studi, che mettono in luce il loro impatto negativo sull'aderenza medica e sulla qualità di vita residua dei pazienti, suggerendo la necessità di una comunicazione che includa la gestione degli aspetti emotivi connessi alla malattia (Nagamatsu et al., 2019; Warby et al., 2019; Sherborne et al., 2020).

L'impatto negativo dei trattamenti medici sulla qualità di vita dei pazienti affetti da MM è stato rilevato da diversi studi (Nowak et al., 2004; Kao et al., 2012; Mollberg et al., 2012; Bonafede et al., 2018; Nagamatsu et al., 2018). Secondo Ribì et al. (2008) le ricadute psicologiche negative dei trattamenti potrebbero superarne gli effetti positivi, inoltre è stato rilevato come spesso la necessità di viaggiare per poter usufruire di cure specialistiche e/o sperimentali spinga i soggetti affetti da MM a rinunciare ad esse (Lee et al., 2009). Alcuni autori hanno rilevato come l'esperienza soggettiva dei pazienti al trattamento variasse sensibilmente in relazione alle loro condizioni fisiche e psicologiche: taluni soggetti riponevano grande fiducia e speranza nelle cure mediche e sperimentali, mentre per altri i trattamenti venivano vissuti con grande distress emotivo e associati a sfiducia e incertezza (Clayson et al., 2005; Guglielmucci et al., 2018a), riportando come le reazioni più frequenti dei soggetti fosse dolore e sconforto (Guglielmucci et al., 2018a; Nagamatsu et al., 2018).

Dagli studi riportati, emerge l'idea che, alla pari dei sintomi fisici invalidanti propri del MM, anche i trattamenti medici causino intense sollecitazioni emotive negative nei malati, che segnalano l'esigenza di modalità comunicative più esaustive e servizi di cura maggiormente centrati sui loro bisogni (Granieri, 2015; Nagamatsu et al., 2019; Sherborne, 2020)

2.3 *Paura della morte*

Come abbiamo illustrato in precedenza i pazienti affetti da mesotelioma hanno una prognosi infausta; sembra inevitabile, dunque, che quello della morte sia un tema che li riguardi da vicino. Zandwijk et al. (2013) affermano come la paura della morte sia un'emozione ricorrente tra i malati di MM. Essi riportano elevate preoccupazioni riguardo a quando e a come moriranno (Chapple et al., 2004; Clayson et al., 2005): malati e familiari vivono con ansia e paura l'idea del lutto così come il dover riorganizzare la loro vita dopo la morte della persona cara malata di MM (Guglielmucci et al., 2018a), ma nei malati traspare anche la strenua volontà di lasciare, quando non ci saranno più, i "loro affari in ordine" per alleggerire i loro familiari dal peso della gestione economica (Chapple et al., 2004).

La paura della morte è stata correlata ai sintomi fisici che la malattia porta in campo (Dooley et al., 2010; Ball et al., 2016; Guglielmucci et al., 2018a,b), così come alle complesse vicissitudini medico-legali che spesso le famiglie colpite da MM si trovano a dover affrontare (Moore et al., 2008; Hughes & Arber, 2008; Granieri, 2008; Ball et al., 2016, Guglielmucci, 2016). Inoltre, alcune ricerche evidenziano anche nei caregivers la paura di contrarre loro stessi il MM e di morire (Granieri, 2008; Guglielmucci et al., 2015a; Borgogno et al., 2015).

2.4 *Vissuti depressivi e assenza di speranza*

Esiste un certo consenso nel ritenere che la percezione di "essere senza speranza" sia molto diffusa nei soggetti affetti da MM (Clayson et al., 2005; Moore et al., 2010; Granieri et al. 2013; Guglielmucci et al., 2015, 2018a). Secondo Ball et al. (2016) la mancanza di speranza di tali soggetti deriverebbe da una limitata aspettativa di vita e dall'incurabilità della malattia, mentre Girgis et al. (2019) affermano come tale vissuto derivi dalla predominanza di informazioni negative ("*breaking bad news*" – BBN) che medico comunica al paziente nel corso della malattia e del trattamento.

Sembrerebbe esserci una certa variabilità individuale in merito al grado di speranza che i pazienti ripongono nel futuro: mentre taluni appaiono privi di qualsivoglia speranza per gli effetti del trattamento (Hughes & Arber, 2008; Ball et al., 2016), altri sembrano riporre speranze irrealistiche nelle cure, probabilmente un'estrema reazione difensiva messa in

atto per riuscire a gestire e dare un senso a una situazione che attiva forti vissuti di impotenza e disperazione (Ball et al; 2016; Guglielmucci et al., 2015, 2018a). Weinert et al. (2011) ricordano come il sentirsi senza speranza sia uno dei vissuti dei soggetti depressi. Numerose ricerche sottolineano, infatti, come la depressione sia un elemento comune nella costellazione di disturbi mentali dei soggetti con MM (Kao et al. 2012; Arber & Spencer, 2012; Ball et al., 2016). Come già esposto in precedenza lo shock e il trauma derivante dalla comunicazione della diagnosi di MM possono portare all'insorgenza di sintomi depressivi (Taylor et al., 2019; Bonafede et al.; 2018; Clayson et al, 2005; Granieri et al. 2013). Una survey condotta dalla British Lung Foundation (BLF, 2008) evidenzia che un soggetto su due affetto da MM riporta di sentirsi depresso dal momento della diagnosi. Similmente, nello studio di Moore et al. (2008), il 52% dei soggetti con MM risultavano soffrire di depressione e spesso è stato notato come in tali soggetti depressione e disturbo-post traumatico da stress siano in comorbidità (Dooley et al., 2010). In particolare, a causa della natura progressiva della malattia, i sintomi di stress e depressione potrebbero peggiorare di pari passo alla generale condizione di salute dei pazienti: soggetti che diventano fisicamente meno attivi limitando le opportunità di interazione sociale, soffrono di alienazione emozionale e sociale, fattori che, insieme ad ansia e problemi del sonno, potrebbero risultare in un aumentato rischio per una depressione grave (Dooley et al., 2010).

Maat et al. (2015) sottolineano come dare ai pazienti affetti da MM false speranze potrebbe portarli ad accettare di sottoporsi a trattamenti eccessivamente aggressivi con pochi benefici e gravi effetti collaterali. Allo stesso tempo, però, gli autori sottolineano come sia importante mantenere un senso di speranza in questi pazienti, che potrebbe influenzare positivamente il loro sistema immunitario e permettergli di sviluppare un maggior senso di benessere e migliorare la loro qualità di vita. Maat et al. (2015) concludono quindi affermando come sia necessario avere un approccio realistico con questi pazienti, destreggiandosi tra il non dare troppe speranze ai soggetti e il non darne affatto: una via di mezzo spesso difficile da individuare, che va sistematicamente esplorata per riuscire a intervenire in modo specifico a seconda delle peculiarità del soggetto (per esempio attraverso focus-group e inchieste). Similmente, Atul Gawande (2015) nel libro *"Being Mortal"* sostiene come dal punto di vista clinico sia di fondamentale importanza favorire e sostenere uno sguardo fiducioso verso il futuro,

aiutando il paziente a intravedere la possibilità di avere più tempo da vivere, piuttosto che rimanere rigidamente ancorato a una visione che si concentra esclusivamente su ciò che è “statisticamente più probabile”.

2.5 La dinamica della colpa/tradimento/lealtà

La dinamica dell’attribuzione della colpa nei soggetti affetti da MM è una dinamica complessa e, a volte, contraddittoria. Numerosi studi hanno rilevato la presenza di vissuti di colpa dai soggetti affetti da MM, spesso accompagnati da sentimenti di rabbia e tradimento per aver contratto la malattia lavorando (Hughes & Arber, 2008; Ball et al., 2016; Guglielmucci, 2016, Bonafede et al., 2018; Guglielmucci et al. 2015, 2018a,b). Tuttavia, se da un lato l’attribuzione della colpa appare intimamente connessa alla dimensione lavorativa, dall’altro emergono in questi pazienti anche conflittuali sentimenti di lealtà nei confronti degli stessi ex datori di lavoro, verso i quali provano un sentimento di gratitudine per aver fornito loro un lavoro stabile (Clayson, 2003; Ball et al., 2016; Guglielmucci, 2016). Una dinamica simile viene riportata dallo studio di Lee et al. (2009) nel contesto della Latrobe Valley in Australia, fatta di ambivalenza tra lealtà e sentimenti di rabbia/tradimento verso la compagnia per aver ignorato i rischi a danno degli operai. Nello studio di Clayson et al. (2005) viene riportato il caso di un soggetto affetto da MM che faceva fatica ad attribuire la colpa all’azienda che aveva esposto sia lui sia suo padre all’asbesto. Questo tipo di reazione, specificano gli autori, potrebbe rimandare a un’accettazione inconscia del rischio di malattia oppure alla scarsa energia mentale in seguito all’intenso distress fisico e mentale: in altre parole, i soggetti non avrebbero più la forza necessaria né per vivere l’esperienza, né per reagire con ulteriore rabbia al danno subito.

Accanto alla responsabilità attribuita ai datori di lavoro per l’insorgenza della malattia, alcuni autori hanno postulato anche l’esistenza di una dinamica di auto-attribuzione di colpa connessa all’aver esposto i propri cari all’asbesto e dunque al rischio di contrarre loro stessi il MM (Clayson, 2003; Guglielmucci, 2016; Guglielmucci et al., 2018a,b).

2.6 MM come stigma

Goldie e Desmarais (2005) hanno ipotizzato che il cancro rappresenti una sorta di “stigma sociale”, che investirebbe non solo il soggetto affetto dalla malattia, ma anche la percezione del paziente da parte delle altre persone, compreso lo staff medico. Alcuni studi postulano l’esistenza di uno stigma sociale nei confronti del MM, che avrebbe come diretta conseguenza un isolamento del malato. Nello specifico, alla base di tale dinamica risiederebbe la percezione del MM come una malattia fortemente temuta e percepita come contagiosa: in alcuni casi i pazienti si percepivano evitati da parenti e amici, come se fossero infetti (Hughes & Arber, 2008; Granieri, 2017; Guglielmucci et al., 2018a,b; Franzoi et al., 2015). Chapple et al. (2004) in particolare specificano come i soggetti affetti da mesotelioma sembrano condividere lo stigma di una “malattia autoinflitta” e riportano il caso di una paziente la cui figlia non le avrebbe telefonato perché si sarebbe sentita “sporca” a entrare in contatto con il cancro. Alcune evidenze suggeriscono che non solo i malati di MM (Ball et al., 2016), ma anche i soggetti esposti ad asbesto risentano degli effetti negativi dello stigma (i.e. distress emotivo, isolamento sociale) (Weinert et al., 2011).

2.7 Modalità di fronteggiamento del distress emotivo correlato al MM

Come accennato nel capitolo precedente, la letteratura evidenzia che le strategie maggiormente utilizzate per affrontare il distress psicologico correlato al MM siano di tipo evitante, portando l’individuo a distanziarsi momentaneamente da una situazione problematica e dalle emozioni dolorose che essa porta in campo (Bonafede et al., 2018; Clayson et al., 2005; Guglielmucci et al., 2018a,b; Arber & Spencer, 2012; Lebovits et al., 1981). Tuttavia, tali strategie si rivelano inefficaci incrementando il rischio dei malati di MM di incorrere in sintomi post-traumatici (Bonafede et al., 2020). Alcuni studi mettono in luce anche una certa tendenza alla somatizzazione in questi pazienti (Granieri, 2008, 2013), che tuttavia sembra aumentare la possibilità di sviluppare vissuti depressivi (Bonafede et al., 2020).

Altri studi hanno evidenziato il ricorso a strategie maggiormente funzionali attivate dai malati di MM nel processo di adattamento alla loro nuova condizione. Bonafede et al. (2020) segnalano, per esempio, come la religione e il mantenere un’attitudine positiva nonostante la malattia rappresentino per questa tipologia di malati strategie efficaci nel

contrastare sintomi depressivi e post-traumatici. Accettare stoicamente la malattia e le sue ricadute emotive senza cedere a una visione prospettica negativa basata su numeri e statistiche sembra rappresentare una modalità di fronteggiamento maggiormente adattativa per i malati di MM, che consente loro di maneggiare in modo efficace il distress psico-fisico correlato al MM. Tale atteggiamento è spesso associato a un ruolo maggiormente attivo del malato nella gestione del MM e della propria vita (Clayson, 2003; 2007) e riveste importanti ricadute cliniche poiché permette di sviluppare un maggiore senso di controllo sulla malattia e autoefficacia (Clayson et al., 2005; Girgis et al., 2019),

Altre ricerche hanno posto in luce come la ricerca di supporto sociale e lo scambio emotivo con l'altro aiuti i malati a sentirsi meno soli, riducendo l'impatto emotivo negativo del MM (Moore et al., 2010). La letteratura evidenzia, infatti, che la ricerca di informazioni chiare e dettagliate sulla malattia e sui trattamenti possibili, così come la condivisione dei vissuti emotivi ad essa connessi consentano un miglior adattamento psicologico al MM da un lato riducendo l'incertezza e incrementando il senso di controllo sulla malattia e sugli aspetti relativi al fine-vita (Moore et al., 2010; Nagamatsu et al., 2019; Girgis et al., 2019; Sherborne et al., 2020), dall'altro diminuendo le ansietà provate e promuovendo il processo di risignificazione della malattia (Granieri et al., 2015; 2018).

2.8 Preoccupazione per familiari/caregivers:

La review di Ball et al. (2016) pone in evidenza come i pazienti affetti da MM siano preoccupati e impauriti nei confronti dei loro familiari e caregivers. Gli autori riportano la paura di diventare un peso, di causare loro turbamento o dolore, così come la preoccupazione per averli esposti a un potenziale rischio di contaminazione a causa della presenza dei loro vestiti contaminati in casa. Le intense preoccupazione circa la salute dei propri cari, sostenute dalla convinzione di averli esposizione a un rischio di salute mortale, sembrano attivare nei malati vissuti di colpa difficili da elaborare (Guglielmucci et al., 2018a,b; Granieri et al., 2017; Hughes & Arber, 2008). Risultati analoghi emergono anche nel lavoro condotto da Granieri et al. (2018) che mette in luce come spesso siano i

malati a preoccuparsi maggiormente per la salute e per il futuro dei propri familiari rispetto ai caregivers.

2.9 Ansia e vissuti post-traumatici

L'impatto dell'MM è stato associato a paura e ansia in numerosi lavori (Lebovits et al., 1983; Clayson et al., 2005; Moore et al., 2010; Granieri et al. 2013; Bonafede et al., 2018; Guglielmucci et al., 2018a,b, Taylor et al, 2019). La sopracitata survey della BLF (2008) rileva come il 67% dei soggetti affetti da MM riporti sintomi di ansia, tali risultati trovano conferma in successive ricerche che evidenziano come generalmente i disturbi d'ansia siano frequenti in questa tipologia di malati (Dooley et al., 2010; Arber & Spencer, 2012; Ball et al., 2016). In particolare, la sintomatologia ansiosa è stata associata all'intensità dei sintomi fisici. Lo studio di Clayson et al. (2005) associa il vissuto di ansia alle difficoltà respiratorie e alla necessità di dover "combattere per respirare" che i malati esperivano quando "annaspavano alla ricerca d'aria", affermando che elevati livelli di ansia e dolore siano più presenti in soggetti affetti da MM rispetto ad altre patologie oncologiche. Anche per Dooley et al. (2010) la sintomatologia ansiosa è correlata alle difficoltà respiratorie: la difficoltà nel respirare rimandava continuamente ai soggetti il fatto di essere malati terminali in procinto di morire generando così intensi vissuti traumatici di paura e angoscia.

Dooley et al. (2010) affermano come reazioni di stress post-traumatico siano state riportate in diverse forme di cancro e come anche i soggetti ex-esposti ad asbesto soffrano spesso di problemi psicologici, quali per esempio disturbo post-traumatico da stress (PTSD). Nello studio di Barak (1998) il 50% dei soggetti affetti da asbestosi soffre di sindrome post-traumatica da stress in cui il trauma attuale è la consapevolezza della propria futura morte prematura. Risultati simili emergono anche in ulteriori lavori che sottolineano come l'esposizione ad asbesto sia spesso associata alla paura di morte prematura, causando lo sviluppo di condizioni di stress post-traumatico (Guglielmucci et al., 2015; Bonafede et al., 2018). Lo studio di Bonafede et al. (2020) riporta percentuali assai inferiori: l'11,11% dei malati di MM supera il cut-off clinico per il DTS, presentando una severa sintomatologia post-traumatica.

Capitolo 3: Revisione sistematica della letteratura

In un recente editoriale pubblicato sull'*European Journal of Psychological Assessment*, Ziegler (2014) afferma che le domande che dovrebbero orientare il processo di costruzione di un test psicologico sono:

- A. Quale costrutto intendo misurare?
- B. Quali sono gli usi previsti del mio test?
- C. Qual è la popolazione target a cui è rivolto il test?

Più in generale, l'autore afferma che le risposte a queste domande non determinano soltanto la strategia di costruzione in molti aspetti importanti, ma forniscono anche la base per l'uso corretto del test da parte dei professionisti. Orientano e favoriscono la strategia di validazione e possono essere utilizzate come trampolini di lancio per altri ricercatori che si basano sui risultati pubblicati (Ziegler, 2014).

In primo luogo, dunque, al fine di identificare le dimensioni chiave della sofferenza psicologica di pazienti affetti da MM è stata condotta una revisione sistematica della letteratura in conformità con le linee guida PRISMA (*Preferred Reporting Items for Systematic Review e Meta-Analyses*) (Moher et al., 2009).

La ricerca ha preso in considerazione studi qualitativi e quantitativi, incentrati sugli aspetti psicologici nei pazienti con MM o patologie legate all'amianto, pubblicati tra il 1980 e il 2016, prendendo in considerazione le seguenti banche dati: Cochrane Library, Psychology Behavioral Science Collection, PsychINFO, PubMed, PubGet, PubPsych e Scopus.

Le parole chiave utilizzate per la ricerca sono state: "mesothelioma" OR "asbestos + surveillance" combinate con "patient", "experience", "psychological", "support", "quality of life", "stress", "counseling/counselling", "palliative care", "psycho-oncology", "depression" OR "anxiety". Ogni studio ritenuto potenzialmente rilevante è stato analizzato da quattro giudici indipendenti e in caso di disaccordo è stato consultato un quinto giudice esperto.

Solo gli studi che rispettavano i seguenti criteri di inclusione sono stati inclusi nel processo di revisione:

1. disegno quantitativo (coorte, caso-controllo, cross sectional) o qualitativo (case crossover o case report);
2. campione compost da malati di MM (preferibilmente > 5);
3. focus sugli aspetti psicologici MM-correlati;
4. lingua italiana, inglese, francese e spagnola;
5. studi pubblicati tra il 19881 e il 2016.

Gli studi che non riportavano risultati originali (i.e. reviews, letters, editoriali, commenti) sono stati esclusi.

Il processo di revisione ha portato all'identificazione di 11.758 record³, dopo l'esclusione dei duplicati sono sopravvissuti 5.501 records, di questi 58 sono stati analizzati in full text e 12 sono sopravvissuti al processo di selezione. La Figura 1 riassume le diverse fasi del processo di revisione sistematica

³ Il lavoro di Bonafede et al. (2018) prende in considerazione sia soggetti con diagnosi di MM sia soggetti ex-esposti ad asbesto. Considerato l'obiettivo di costruire uno strumento per malati di MM, in questa sede verranno presi in considerazione solo i risultati relativi alla popolazione target emersi dal processo di revisione sistematica della letteratura.

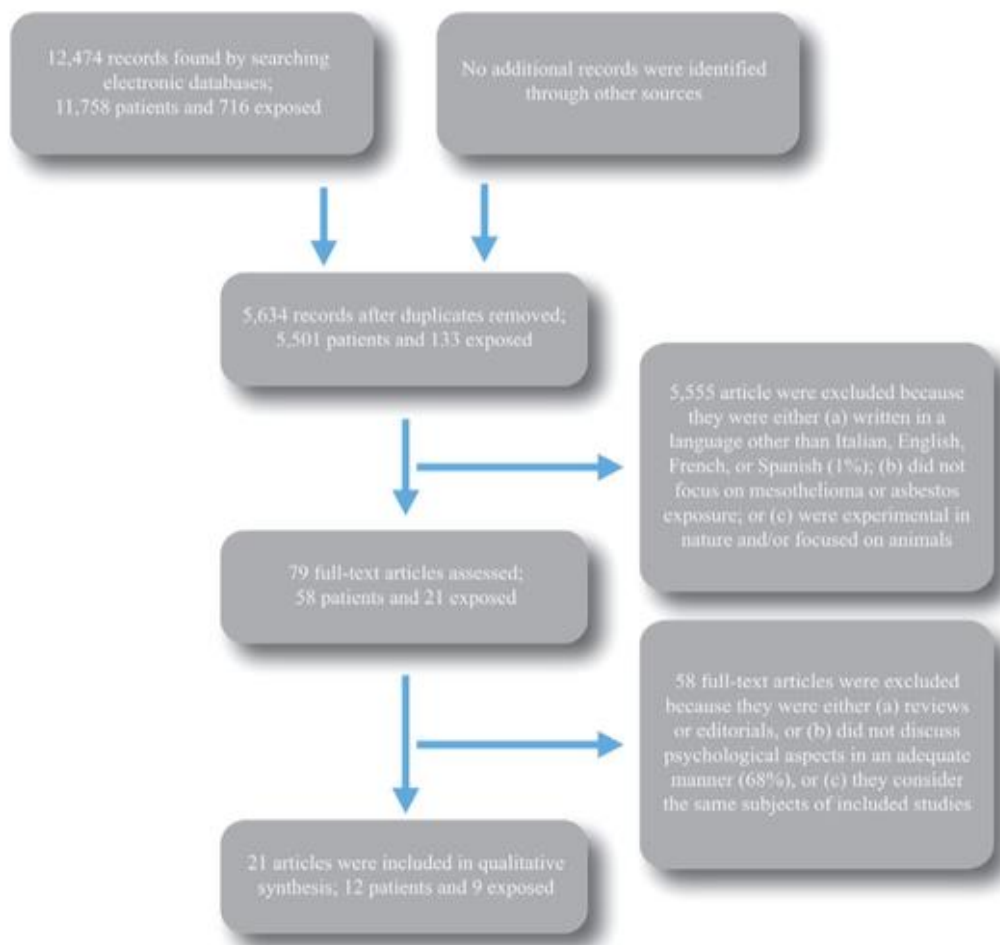


Fig. 1: processo di selezione secondo le linee guida PRISMA (tratto da Bonafede et al., 2018)

Per ogni lavoro eleggibile sono state tabulate le seguenti informazioni:

1. informazioni generali sullo studio (autori, anno di pubblicazione, tipologia di studio);
2. setting (Paese, settore industriale, occupazione);
3. caratteristiche sociodemografiche del campione;
4. tipologia di esposizione ad asbesto (occupazionale, ambientale, familiare, tempo libero);
5. strumenti utilizzati;
6. outcomes.

Considerata l'eterogeneità degli strumenti utilizzati e dei risultati ottenuti non è stato possibile effettuare una meta-analisi degli stessi. Si è proceduto quindi con una sintesi narrativa delle maggiori evidenze raccolte, volta a identificare i costrutti comuni ricorrenti (Tabella 1).

Autori, anno	Paese	Numero pazienti (% maschi)	Tipo di studio	Modalità di esposizione all'amianto	Strumenti (tipologia; aspetti/dimensioni investigati)	Risultati principali
Lebovits AH, Chahinian AP, Gorzynski JG, Holland JC. 1981	USA	10 MM (70%)	Qualitativo	7 occupazionale; 1 familiare; 2 ambientale	Interviste semi-strutturate: esposizione all'amianto, informazioni sui rischi e reazione del paziente, abitudini relative al fumo, sentimenti relativi alla malattia e all'industria dell'amianto	Sentimenti relativi al sentirsi sfortunati, incredulità e rabbia. La negazione era il meccanismo di coping più comune, sia in attitudini e reazioni comportamentali riguardo le informazioni sul rischio, sia in relazione all'industria dell'amianto e al processo della malattia.
Lebovits AH, Chahinian AP, Holland JC. 1983	USA	38MM (82%)	Qualitativo	28 occupazionale; 6 familiare; 2 sconosciuta	Interviste semi-strutturate: storia lavorativa, informazione sul rischio, abitudini relative al fumo, strategie di coping, reazioni psicologiche alla malattia e all'industria dell'amianto	Sentimenti di depressione e ansia, incredulità rispetto al fatto che l'amianto possa essere responsabile della malattia. La reazione all'informazione sul rischio del cancro è stata la negazione del rischio rispetto all'esposizione personale. Nei casi di riconoscimento del ruolo causale dell'amianto, sono stati rilevati sentimenti di colpa, rimorso e rabbia verso se stessi (rabbia verso l'industria dell'amianto nel 65% dei casi)
Nowak AK, Stockler MR, Byrne MJ. 2004	Australia	53MM (85%)	Quantitativo (trial clinico)	Non specificato	European Organization for Research and Treatment of Cancer (EORTC) Core Quality of Life Questionnaire (QLQC30); Lung Cancer Module (QLQLC13).	Gli aspetti più compromessi rispetto alla Health-Related Quality of Life sono stati la funzione del ruolo e funzione sociale. Questo studio supporta la validità di EORTC QLQ-C30 e LC13 come misure di esito per gli studi di chemioterapia nel mesotelioma.

Clayson H, Seymour J, Noble B. 2005	Regno Unito	15MM (87%)	Qualitativo	12occupazionale; 1 familiare + att. ricreative; 2 attività ricreative	Interviste: storia personale e medica, esposizione all'amianto, impatto della malattia e strategie di coping, aspetti finanziari, piani per il futuro (questi dati sono stati analizzati secondo il approccio basato sulla teoria)	Paura della morte. La reazione alla diagnosi, dopo uno shock emotivo iniziale, sembra essere stata accettata incondizionatamente. La maggior parte dei pazienti ha espresso la volontà di far fronte alla malattia attraverso il sostegno della loro famiglia, riuscendo a riformulare e loro aspettative di vita, manifestando speranza e umorismo. Una prospettiva fatalistica è stata comunemente manifestata. Solo un paziente ha manifestato apertamente rabbia.
Moore S, Teehan C, Cornwall A, Ball K, Thomas J. 2008	Regno Unito	3-6MM (n/a)	Qualitativo	N/A	Colloqui semi-strutturati: esperienza di gruppo di supporto, usefulness e aspetti pratici.	Sentimenti di dolore e tristezza. Sebbene solo una minoranza di pazienti e i loro familiari/amici siano stati disposti a partecipare a un gruppo di supporto, tutti gli intervistati lo hanno trovato utile.
Ribi K, Bernhard J, Schuller JC, et al. 2008	Svizzera	61MM (93%)	Quantitativo (trial clinico)	N/A	Rotterdam symptom checklist (RSCL); Schedule for the evaluation of quality of life-direct weighting (SEIQoL-DW) attraverso un'intervista semi-strutturata	Perdita di salute, paura del trattamento imminente, sentimenti di incertezza. I pazienti erano più colpiti dall'angoscia dei sintomi psicologici che dall'angoscia dei sintomi fisici.

Dooley JJ, Wilson JP, Anderson VA. 2010	Australia	49MM (100%)	Quantitativo (cross section)	Occupazionale	Trauma symptom inventory (TSI); Impact of events scale-revised (IES-R); Center for epidemiologic studies depression scale (CES-D); General health questionnaire (GHQ); Symptom checklist-90-revised (SCL-90-R).	Presenza di sintomatologia post-traumatica clinicamente significativa, in particolare maggiore tendenza a rivivere l'evento traumatico e ad incorrere in un'iperattivazione fisiologica. I soggetti riportano elevati livelli di depressione, ansia, disfunzione sociale e danno psicologico generale.
Ugalde A, Aranda S, Krishnasamy M, Ball D, 2012	Australia	6MM (n/a) + 102 Cancro al polmone (n/a)	Quantitativo (cross section)	N/A	Needs assessment for advanced lung cancer patients (NA-ALCP); Hospital anxiety and depression scale (HADS); Distress thermometer (DT) come un singolo item; questionario self-report: Dati medici e personali.	Ansia (32%), depressione (19%), e distress psicologico (40%). I bisogni insoddisfatti più comuni erano di natura psicologica/emotiva. La maggior parte aveva a che fare con le "preoccupazioni per le paure e le preoccupazioni della tua famiglia" e le questioni relative alla comunicazione medica.
Arber A. & Spencer L. 2012	Regno Unito	10MM (80%)	Qualitativo	N/A	Interviste semi-strutturate: esperienze associate alla diagnosi e al trattamento, esigenze di cura, e coping (i dati sono stati analizzati secondo l'approccio basato sulla teoria).	Elevati livelli di incertezza e sentimenti di mancanza di controllo, che ha portato a distress emozionale, fisico e psicosociale per i tre mesi dalla diagnosi. Gli eventi positivi che hanno aiutato i pazienti ad affrontare la malattia includono l'uso di medicina complementare e alternativa, visite dal gruppo di supporto e consapevolezza sull'amianto, e rinvio a cure palliative.
Granieri A, Tamburello S, Tamburello A, et al. 2013	Italia	27MM (70%) vs 40 controllo sani (45%)	Quantitativo (case-control)	Sul lavoro	World health organization quality of life-BREF (WHOQOL-BREF); Minnesota multiphasic personality inventory-2 restructured form (MMPI-2-RF).	Preoccupazioni quotidiane, sentimenti di impotenza e inefficacia, comportamento orientato alla restrizione della paura. I pazienti erano più inclini a sperimentare disagio, manifestare diverse paure e a credere non essere in grado di raggiungere i propri obiettivi o di risolvere problemi.

Kao SC, Vardy J, Harvie R, et al. 2013	Australia	63MM (82%)	Quantitativo (trial clinico)	N/A	European organization for research and treatment of cancer (EORTC), Core quality of life questionnaire (QLQC30); Lung cancer module (QLQLC13); Versione modificata del cancer symptom scale (LCSS).	Sintomi di anoressia e affaticamento, punteggio complessivo sintomatico per ansiosità, interferenza con le normali attività, la qualità della vita globale era associata a indice di infiammazione sistemica e più bassi tassi di sopravvivenza.
Wood H, Connors S, Dogan S, Peel T. 2013	Regno Unito	6MM (n/a) + 3 cancro al polmone (n/a)	Qualitativo	N/A	Interviste semi-strutturate da assistenza psicologica: esperienza personale di mancanza di respiro, percezione e impatto del trattamento.	Difficoltà a cambiare abitudini di vita; la necessità di pratica, impegno e concentrazione; incertezza sul futuro. La gestione della mancanza di respiro ha effetti funzionali, sociali e psicologici correlati.

Tab. 1: Caratteristiche sociodemografiche e cliniche del campione (Tratto da Bonafede et al., 2018)

I risultati della revisione hanno consentito l'identificazione di 5 costrutti che sembrano delineare il quadro di sofferenza psicologica dei malati di MM. La Figura 2 sintetizza i costrutti indagati da ciascuno dei 12 lavori sopravvissuti al processo di revisione sistematica.

Authors (year)	Psychological state of individuals with MM diagnosis	Emotional aspects related to the occupational context	Coping strategies	Patient experiences with treatment	Factors affecting the quality of life
Lebovits et al ²³	■	■	■		
Lebovits et al ²⁴	■	■	■	■	
Nowak et al ³⁰	■				
Clayson et al ²⁵	■	■	■	■	■
Moore ³⁹					■
Ribi et al ³¹			■	■	■
Dooley et al ²⁶	■	■			
Ugalde et al ³³	■	■	■	■	■
Arber and Spencer ⁴⁰	■	■	■	■	■
Granieri et al ¹⁵	■	■	■	■	■
Kao et al ³²			■		
Wood et al ⁴¹	■	■	■	■	■

Fig. 2: Costrutti individuati dalla review che identificano la sofferenza psicologica dei malati di MM (tratto da Bonafede et al., 2018)

I 5 costrutti identificati hanno rappresentato il punto concettuale di partenza per la costruzione del questionario MPDT (Cfr Studio 2).

Studio 1: Analisi tematica delle interviste in profondità ad un campione di malati di MM

Nonostante il processo di identificazione, selezione, analisi e sintesi delle evidenze presenti in letteratura abbia preso in considerazione un ampio numero di database, un vasto range temporale, disegni di ricerca quali-quantitativi e articoli scritti in diverse lingue, solo un esiguo numero di lavori (n=12) è sopravvissuto, evidenziando così una conoscenza ancora ridotta del fenomeno. Il ridotto numero di studi evidenzia quindi la necessità di condurre ulteriori ricerche per giungere a una maggiore comprensione della peculiare sofferenza psicologica di questa popolazione.

L'importanza di utilizzare approcci multi-metodo nella ricerca psicologica è ben nota (Eid & Diener, 2006). In particolare, indagare all'interno dello stesso progetto di ricerca componenti differenti dello stesso fenomeno attraverso metodologie differenti, consente di incrementare la conoscenza su esso e la forza dello studio (Fielding & Fielding, 1986; Flick, 1992).

Alcuni autori hanno sottolineato come l'esperienza soggettiva dei malati di MM rimane tutt'oggi sotto-studiata, suggerendo l'utilità di ulteriori studi qualitativi (Moore et al., 2010; Ball et al., 2016). Per questa ragione si è scelto di indagare l'esperienza soggettiva dei soggetti affetti da MM attraverso un disegno di ricerca di tipo qualitativo retrospettivo, da intendersi come una strategia di implementazione del processo di revisione sistematica. In questo senso, gli obiettivi del presente studio sono:

- colmare il gap evidenziato in letteratura indagando in profondità come i malati di MM percepiscano e vivano la loro malattia;
- ottenere una più solida base di partenza concettuale per la costruzione del questionario.

Materiali e metodi

Il presente studio ha utilizzato un approccio bottom-up derivato dalla grounded theory (Glaser & Strauss, 1967), in cui le assunzioni teoriche vengono astratte a partire dai dati raccolti empiricamente (Charmaz, 2006). Per indagare come i malati vivono il MM è stata condotta un'analisi tematica retrospettiva su interviste aperte semi-strutturate audioregistrate condotte all'interno dello studio AVPM⁴ (Assessment delle Variabili Psicologiche nei casi di Mesotelioma – Assessing Psychological Variables in Mesothelioma) (CCM protocol number J19E12001060001), approvato dal CE ospedaliero dell'A.O. di Alessandria (AVPM-14/11/2014). Le interviste erano rivolte a malati di MM e loro caregivers come processo preliminare di selezione per prendere parte alla sperimentazione di un intervento psicoterapeutico gruppale breve (per la definizione delle caratteristiche cliniche dell'intervento si rimanda a Granieri et al., 2018). Esse sono state condotte da 2 psicologi clinici in modalità vis-à-vis, hanno avuto una durata media di 45 minuti (range 30-70 minuti) e indagavano 4 temi specifici:

1. esposizione ad asbesto;
2. cure mediche;
3. impatto del MM nella propria vita e nelle proprie relazioni (in particolare quelle familiari);
4. strategie di fronteggiamento della malattia e fine vita (tematiche del lutto e del futuro).

I partecipanti sono stati reclutati presso la SSD Mesotelioma dell'A.O. di Alessandria e intervistati nei periodi ottobre 2014-gennaio 2015 e novembre 2016-ottobre 2017. I criteri di inclusione per poter accedere alla sperimentazione clinica erano:

1. diagnosi di MM in qualsiasi localizzazione/essere un caregiver di un paziente affetto da MM;

⁴ Lo studio AVPM è stato condotto presso la SSD Mesotelioma dell'A.O. di Alessandria, un'unità interdipartimentale altamente specializzata nella diagnosi e presa in carico dei pazienti con MM, dal Gruppo di ricerca-intervento "Valutazione psicologica e presa in carico globale della persona affetta da mesotelioma" del Dipartimento di Psicologia dell'Università degli Studi di Torino (http://frida.unito.it/wn_pages/percorso.php/412_la-mente-umana-e-la-sua-complessit-educazione-e-linguaggio/2811_valutazione-psicologica-e-presa-in-carico-globale-della-persona-affetta-da-mesotelioma/)

2. diagnosi di MM < 6 mesi;
3. consenso informato scritto.

I criteri di esclusione erano:

1. scarsa conoscenza della lingua italiana;
2. sintomatologia psichiatrica;
3. patologie neurodegenerative (e.g., Alzheimer's disease, Parkinson's disease, etc.).

Tutti i partecipanti hanno fornito il loro consenso informato scritto a prendere parte allo studio, per garantire il loro anonimato i loro reali nomi sono stati cambiati.

Campione

Durante il periodo di reclutamento sono state effettuate 131 nuove diagnosi di MM, in linea con i dati epidemiologici nazionali (Ministero della salute, 2015): 8 soggetti (8,40%) sono stati esclusi a causa delle loro condizioni mediche critiche, 36 (27,48%) hanno scelto di effettuare i trattamenti medici in un altro centro, 47 (35,88%, di cui 11 soggetti per motivazioni logistiche) hanno rifiutato di prendere parte allo studio; infine 4 (3,05%) sono stati esclusi a causa della presenza di sintomatologia psichiatrica. Il campione finale (N=61) è composto da 33 malati di MM (54,09%) e 28 caregivers (45,90%). La Tabella 2 riporta le caratteristiche sociodemografiche e cliniche del campione differenziate rispetto alla condizione medica (malati/caregivers).

	Campione totale (N = 61)			Pazienti (N = 33)		Caregivers (N = 28)	
	M	SD	Range	M	SD	M	SD
Età	60,08	12,10	22-77	64,6	8,16	54,57	13,73
	N	%		n	%	n	%
Genere							
<i>Maschi</i>	27	44,30		21	63,64	6	21,43
<i>Femmine</i>	34	55,70		12	36,36	22	78,57
Livello di istruzione							
<i>Scuola elementare</i>	7	11,50		5	15,15	2	7,14
<i>Scuola media</i>	20	32,80		14	42,42	6	21,42
<i>Superiori</i>	25	41,00		9	27,27	16	57,12
<i>Laurea</i>	7	11,50		4	12,12	3	10,71
<i>Laurea specialistica</i>	2	3,30		1	3,03	1	3,57
Lavoro							
<i>Impiegati</i>	18	29,50		9	27,27	9	32,13
<i>Insegnanti</i>	4	6,60		2	6,06	2	7,14
<i>Operai</i>	7	11,50		4	12,12	3	10,71
<i>Liberi professionisti</i>	8	13,10		5	15,15	3	10,71

<i>Operatori sanitari</i>	1	1,60	0	0	1	3,57
<i>Professionisti legali</i>	5	8,20	2	6,06	3	10,71
<i>Artisti</i>	1	1,60	0	0	1	3,57
<i>Casalinghe</i>	2	3,30	0	0	2	7,14
<i>Pensionati</i>	15	24,60	11	33,33	4	14,28
Status familiare						
<i>Single</i>	1	1,60	0	0	1	3,57
<i>Conviventi</i>	2	3,30	1	3,03	1	3,57
<i>Sposati</i>	49	80,30	26	78,78	23	82,11
<i>Separati</i>	3	4,90	2	6,06	1	3,57
<i>Divorziati</i>	3	4,90	3	9,09	0	0
<i>Vedovi</i>	3	4,90	1	3,03	2	7,14
<i>Mesotelioma pleurico epidelioido</i>			23	69,69		
<i>Mesotelioma pleurico sarcomatoide</i>			1	3,03		
<i>Mesotelioma pleurico bifasico</i>			8	24,24		
<i>Mesotelioma peritoneale</i>			1	3,03		

Tab. 2: Caratteristiche sociodemografiche e cliniche del campione (Tratto da Guglielmucci et al., 2018b)

Procedura

I trascritti verbatim sono stati successivamente analizzati da 3 giudici indipendenti attraverso un'analisi tematica bottom-up in 6 steps (Braun & Clarke, 2006):

1. familiarizzare con i dati: valutare l'accuratezza dei trascritti e generare una lista iniziale di porzioni di dati all'interno del data set;
2. generare i codici: identificare i contenuti semantici utili per esplorare le esperienze soggettive dei partecipanti e attribuire loro dei codici;
3. ricercare i temi: identificare pattern di codici (tema) e le relazioni esistenti tra loro nelle diverse interviste;
4. revisionare i temi: discutere i temi identificati e raggrupparli in cluster, mantenendo solo quelli cui esiste accordo tra i ricercatori;
5. definire e nominare i temi: i ricercatori attribuiscono un'etichetta (nome) a ciascun tema/sotto-tema;
6. produrre un report.

In linea con le considerazioni proposte originariamente dagli autori, si è scelto di non quantificare i dati qualitativi. Si è proceduto utilizzando una procedura bottom-up che ha consentito di astrarre dai dati raccolti categorie tematiche ricorrenti, teoricamente rilevanti e comparabili con la letteratura scientifica sull'argomento (Charmaz, 2006)

Risultati

L'analisi tematica sui primi 19 soggetti reclutati nel periodo ottobre 2014-gennaio 2015 ha identificato 4 temi: 1) sintomi fisici e embodied emotions; 2) vivere in un Sito Contaminato⁵; 3) “niente sarà più come prima”; 4) “cosa ne sarà di noi?” (Figura 3).

⁵ Per Sito Contaminato si intende una particolare area di interesse a livello nazionale caratterizzata da un elevato tasso di contaminazione derivante da attività produttive e industriali, o dallo smaltimento illegale di rifiuti pericolosi. A causa della presenza della fabbrica Eternit Casale Monferrato rappresenta una delle aree maggiormente contaminate da amianto sul territorio nazionale, con un tasso di incidenza oltre 10 volte quello registrato in altre aree. Alcune ricerche psicologiche condotte in quest'area hanno ipotizzato che le caratteristiche epidemiologiche del MM attivino specifici vissuti emotivi nei malati residenti nei Siti Contaminati (i.e. fantasia del contagio areo) che rappresentano elementi peculiari e non generalizzabili a tutta la popolazione di malati di MM. Poiché l'obiettivo del presente lavoro è delineare un profilo

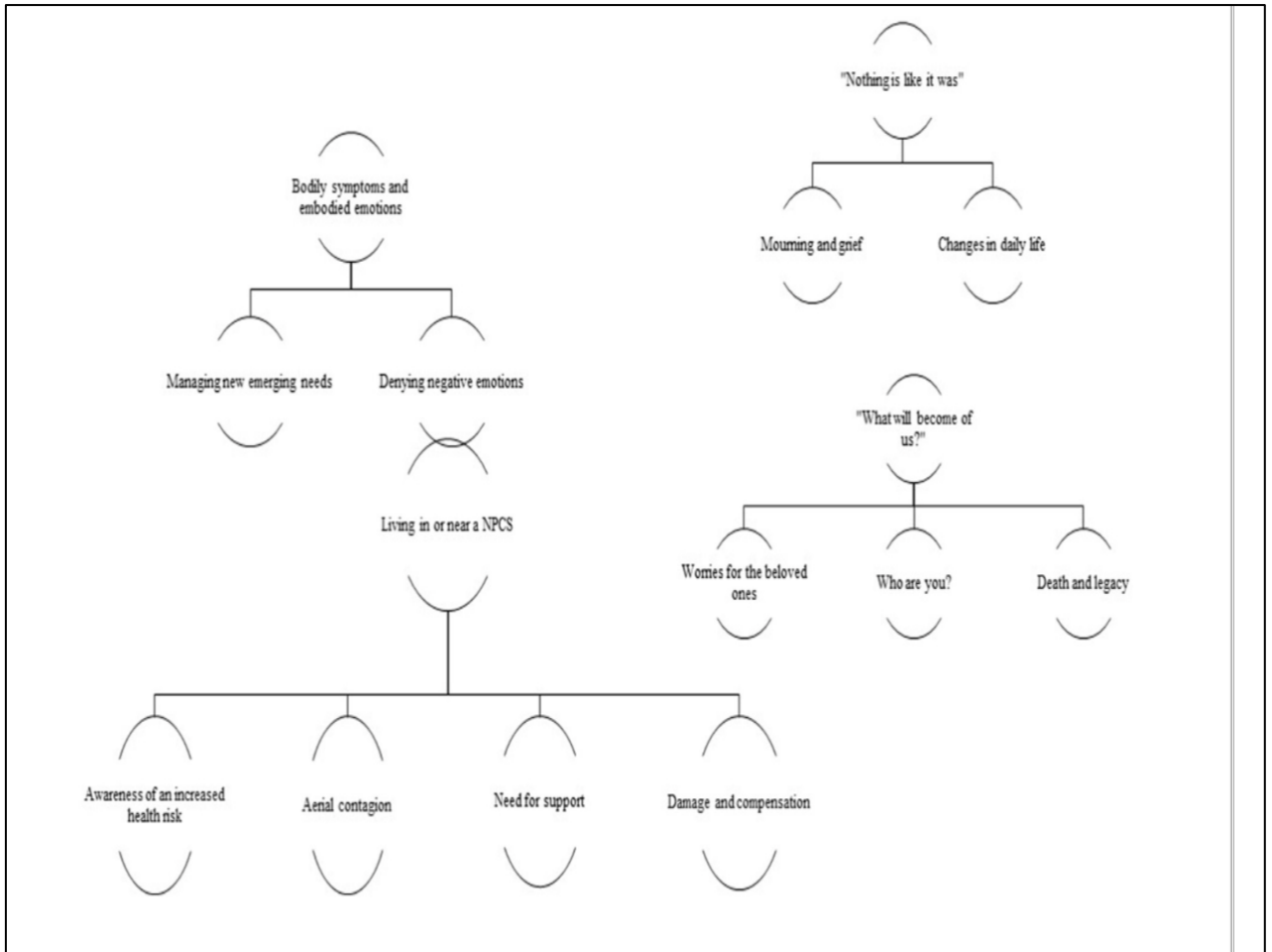


Fig. 3: Mappa tematica (tratta da Guglielmucci et al., 2018a)

Essa mette in luce come per malati e caregivers nominare i vissuti emotivi correlati al MM sia qualcosa di terrifico che deve essere evitato: per loro diventa più semplice raccontare i risvolti fisici della malattia, i cambiamenti e le limitazioni che questa ha comportato sia a livello personale sia a livello sociale. Negare le emozioni traumatiche connesse alla malattia e alla morte diventa allora una strategia per allontanare dalla consapevolezza una realtà dolorosa, difficile da pensare e affrontare, che porta in campo la paura di morire e di perdere i propri cari, l'impotenza davanti a una malattia per cui non esiste cura, la rabbia e il desiderio di risarcimento per quello che ingiustamente ci si

psicologico generalizzabile a tutta la popolazione di malati di MM, in questa sede non verranno presentati i risultati relativi alla specificità del risiedere in un Sito Contaminato, si rimanda il lettore interessato a Guglielmucci et al., 2018a,b.

sente sottratto, la colpa e vergogna per aver in qualche modo accettato passivamente di continuare a lavorare in una realtà contaminata mettendo così a rischio la salute e il futuro di se stessi e dei propri cari. Malati e caregiver si sentono sopraffatti da questi affetti, spaventati dal futuro, soli ad affrontare l'ineluttabilità di un destino tragico, abbandonati dalle istituzioni che avrebbero dovuto tutelare la loro salute, ma al tempo stesso bisognosi di supporto concreto e di una vicinanza affettiva.

Per esempio, Rosangela, una paziente affetta da MM, racconta della sua difficoltà a parlare apertamente della malattia: per lei incontrare persone che si interessano delle sue condizioni di salute è qualcosa che la costringe a pensare a ciò che sta accadendo e a sentire emozioni dolorose e traumatiche. Per molti malati di MM nominare questi aspetti, infatti, sembra essere una sorta di tabù (Farma & Corinovic, 2000), sembra invece più semplice per loro denunciare il danno subito e rivendicare la necessità di ottenere un risarcimento concreto (Rutherford, 1998). Una delle strategie maggiormente utilizzate dai pazienti per fronteggiare l'impatto emotivo della malattia risulta essere l'evitamento: accade così che, poco a poco, il malato inizi ad evitare tutte quelle situazioni che a qualche livello lo costringerebbero a pensare al MM, distanziandosi così dagli affetti e dalle relazioni (Sherborne et al., 2020; Guglielmucci et al., 2018 a,b). Tuttavia, se in un primo momento l'attivazione di strategie evitanti può risultare efficace per difendersi da una realtà traumatica e dalla sofferenza psichica che questa porta in campo, queste strategie protratte nel tempo incrementano il vissuto di solitudine e isolamento sociale spesso esperito da questa tipologia di malati (Dooley et al., 2010; Buultjens et al., 2015; Hughes & Arber 2008), impedendo loro di significare l'esperienza di malattia e aumentando così il rischio di traumatizzazione (Bonafede et al., 2020).

Risultati analoghi emergono anche dall'analisi delle interviste effettuate nel periodo novembre 2016-ottobre 2017. L'analisi tematica dei trascritti evidenzia 4 temi ricorrenti: 1) sintomi fisici, affetti e strategie di fronteggiamento; 2) vivere in un Sito Contaminato; 3) "niente sarà più come prima"; 4) "cosa ne sarà di noi?" (Figura 4).

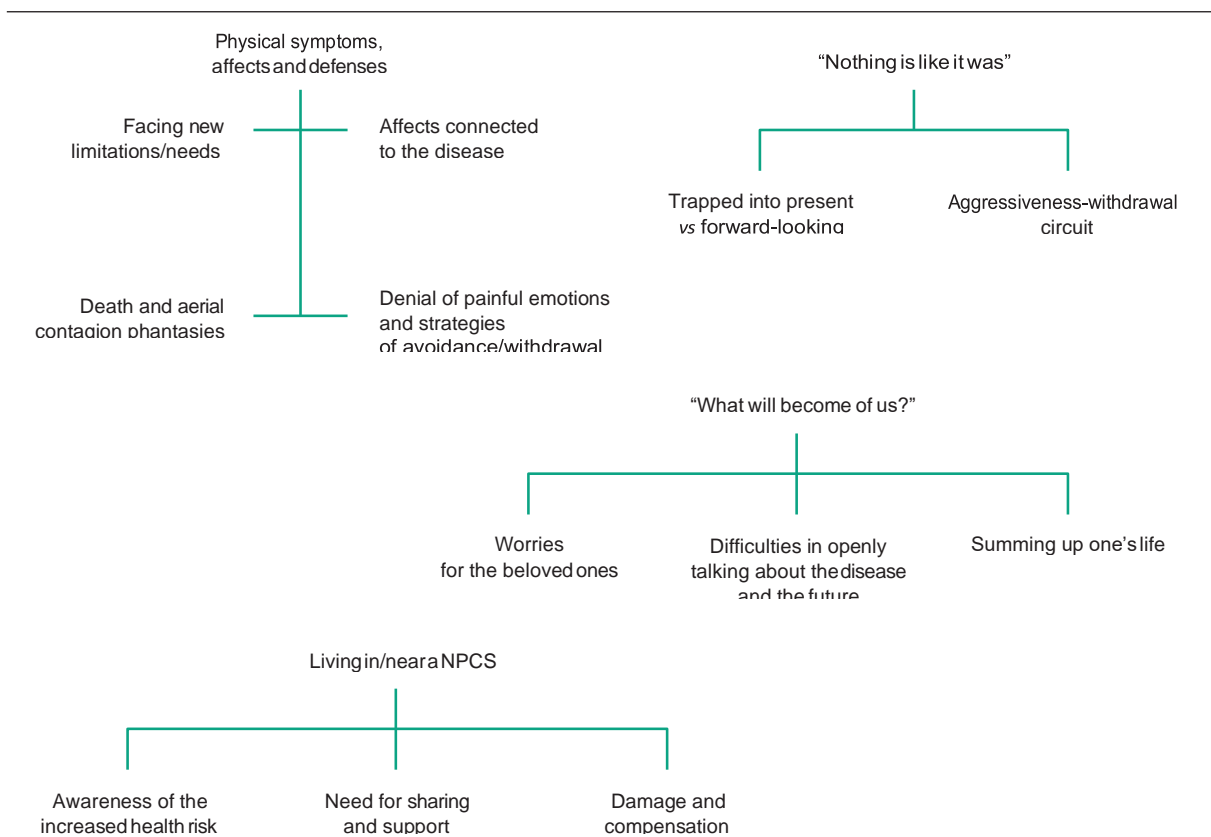


Fig. 4: Mappa tematica (tratta da Guglielmucci et al., 2018b)

Per malati e caregivers i sintomi fisici del MM (e.g. dolore, dispnea, tosse, stanchezza e debolezza eccessiva, perdita di peso, difficoltà a deglutire) sono altamente invalidanti: da un lato essi limitano notevolmente l'autonomia del malato creando dinamiche di dipendenza all'interno del nucleo familiare, dall'altro portano in campo intense emozioni negative difficili da gestire (Arber & Spencer, 2012; O'Brien et al., 2006; Ministero della Salute, 2012; Granieri, 2015). La malattia e la conseguente progressiva perdita di autonomia fanno emergere infatti nuove limitazioni e nuovi bisogni, che inevitabilmente si accompagnano a sintomi depressivi e a una profonda rabbia. Quest'ultima sembra avere due differenti radici: da un lato la frustrazione dei malati derivante dal non essere più in grado di svolgere le normali attività quotidiane in modo autonomo (Arber & Spencer, 2012), dall'altro un profondo vissuto di tradimento connesso all'eziologia lavorativa del MM e alle complesse vicende medico-legali necessarie per il riconoscimento della malattia professionale (Guglielmucci, 2016; Granieri, 2016). La rabbia e la frustrazione

provate, difficili da elaborare, vengono traslati all'interno della famiglia, sull'équipe curante e nel contesto lavorativo-istituzionale mettendo così a dura prova la tenuta delle relazioni e dando avvio ad aspetti rivendicativi.

Maria Pia: Sono arrabbiata, cioè, non sopporto più nessuno. Non voglio vedere nessuno e mi sento, non lo so, una nullità. [...]. Gli ho detto (riferito al marito): “Finiamola qui”, ma lui non vuole.

Rino: Per ottenere che sia una malattia occupazionale sono dovuto andare all'INAIL e fare delle interviste. Siamo andati là e risposto a tutte le loro domande [...]. La fanno difficile perché non vogliono pagare: dopo tutto è mesotelioma. Dovrebbe esserti riconosciuto e basta.

I malati si sentono traditi da aziende che li hanno esposti ad un rischio mortale in nome del profitto, da Istituzioni insensibili che sembrano non tutelare i loro diritti, usati come “cavie” per testare nuovi trattamenti medici di cui però non potranno beneficiare. È stato ipotizzato che tale attitudine aggressiva-rivendicativa rappresenti in realtà una risposta all'impotenza e all'assenza di controllo e agency private (Brien et al., 2010; CASP, 2020), strettamente correlate all'assenza di cure efficaci per questa specifica patologia oncologica. Recentemente Nagamatsu et al. (2019) ha sottolineato come il processo comunicativo medico-paziente nel caso del MM sia frammentato e poco chiaro: i malati lamentano una mancanza di informazioni chiare e dettagliate sulla malattia, la prognosi e le diverse opzioni terapeutiche possibili. Tale confusione può generare in loro un distress emotivo e un senso di discontinuità e abbandono. In questo senso, è possibile che la rabbia e la frustrazione esperita verso curanti e trattamenti medici sperimentali sia connessa all'intima sensazione di sentirsi abbandonati dai curanti e al senso di impotenza provato, in balia di opzioni terapeutiche poco chiare, di dubbia efficacia e spesso aggressive, che i medici conoscono poco (soprattutto in relazione ai possibili effetti collaterali).

Per molti partecipanti parlare apertamente del MM e delle loro emozioni risulta difficile, anche all'interno del proprio nucleo familiare.

Rosangela: Lui [il marito] non vuole parlare della mia malattia [...]. Non vuole parlare con nessuno.

In linea con la letteratura, i partecipanti sembrano fronteggiare l'intensità di questi vissuti negativi per lo più attraverso l'attivazione di strategie disfunzionali, quali negazione ed evitamento (Bonafede et al., 2018; Sherborne et al., 2020) che ostacolano però il processo di significazione ed elaborazione di una realtà traumatica.

Mauro (caregiver): Provi a non pensarci. Meno ci penso, meglio sto.

Bruno: [un altro paziente] mi ha detto: “Perché sei così giù? Non ci devi pensare. Io non ci penso mai.”

Molti malati si vergognano rispetto alla loro condizione clinica: incontrare lo sguardo e le domande di parenti e amici risulta difficile da sostenere e stigmatizzante (Hughes & Arber, 2008; Granieri, 2015; Ribi et al., 2008), essi preferiscono piuttosto isolarsi e limitare al massimo la vita sociale.

Rino: [e ti chiedono]: “Come stai?” Come pensi che sto? Rompiballe!

Luca: Ho iniziato a pensare [...] “Adesso esco, vedranno subito che ho il mesotelioma, che sono malato.”

Altri sembrano, invece, ricercare e il supporto e la vicinanza emotiva in un periodo così doloroso della loro vita, condividendo l'incertezza e la sofferenza con qualcuno che abbia attraversato la loro stessa esperienza di malattia, capace di cogliere e comprendere profondamente le diverse sfumature emotive di questa rara patologia oncologica (Girgis et al., 2019; Kasai & Hino 2018; Hughes & Arber; 2008)

Mirella: Forse [parlando] in un modo o nell'altro puoi scambiarti punti di vista su come affrontare tutto questo che possono essere completamente differenti.

In questo senso, raccontare la propria storia, confrontarsi con altri con la stessa malattia, essere ascoltati e ricevere al tempo stesso un supporto emotivo da personale specializzato (e.g. psicologi) apre la strada alla possibilità di significare il delicato momento di vita che si sta vivendo, di incontrare nuove e più adattative modalità di comunicazione e fronteggiamento e di prepararsi al lutto (Girgis et al., 2019; Kasai & Hino 2018; Hughes & Arber; 2008; Sherborne et al., 2020)

Tali risultati appaiono in linea con la letteratura sul tema, che pone enfasi sugli aspetti post-traumatici del MM e sull'attivazione di strategie disadattive per fronteggiare le emozioni negative connesse alla malattia (Girgis,et, al., 2019). Solo pochi lavori, infatti, riportano modalità maggiormente adattive di fronteggiamento della malattia: nonostante essa, alcuni malati cercano di vivere la loro vita normalmente (Ball et al., 2016), mantenendo un'attitudine positiva verso il futuro (Moore et al., 2010; Kasai & Hino 2018; Walker et al., 2019).

Per molti partecipanti immaginare e parlare del futuro è complicato e traumatico. Molti trascritti mostrano, infatti, la sensazione di rimanere intrappolati in un presente privo di speranza e colorato da intense preoccupazioni. Così, per esempio, alcuni caregiver raccontano con rabbia e dolore di come, dopo la diagnosi di MM, per i loro cari malati sia impossibile pensare al futuro,

Luisa: [i medici] gli hanno detto che può vivere una vita normale, ma lui si rifiuta. [. . .] Potrebbe fare una vita normalissima, ma non la fa perché sa di essere malato.

Elvira: Perché non suona più [il sassofono]? Perché si comporta in questo modo? Perché non fa più queste cose [che prima faceva]?

Per molti pazienti la diagnosi di MM rappresenta una “spada di Damocle” che porta in campo la consapevolezza di una morte certa e imminente, allontanandoli prematuramente dalla vita. Contemporaneamente essa fa emergere intense preoccupazioni per i propri cari:

Elisa: Penso che posso gestirlo, ma lui [il marito]?

Domenico: Quando l’ho scoperto, sarà una settimana, dieci giorni, ho detto: “Oh Cristo! E ora? Che ne sarà di me?” È la prima cosa a cui pensi la mattina, non ho tanto paura per me, ma per i miei figli.

Ogni sintomo ricorda ai malati che stanno per morire e li costringe a pensare al futuro dei propri familiari dopo la loro morte creando in loro una forte angoscia (Dooley et al., 2010; Taylor & Warnock, 2019). Le preoccupazioni per i propri cari appaiono per lo più di natura concreta e legale-finanziaria: i malati sono molto spaventati dall’idea di non potersi occupare del sostentamento della loro famiglia. Desiderosi di “lasciare in ordine le cose” prima della loro morte, questi aspetti finiscono con l’occupare gran parte della loro mente compromettendo così la possibilità di beneficiare del tempo di vita residuo (Ball et al., 2016; Casellas-Grau et al., 2017; Arber & Spencer, 2012; Buchholz, 2017; Sherborne et al., 2020). Taluni si concentrano nell’ottenere un risarcimento economico per chi resta, altri si apprestano a insegnare al proprio coniuge la gestione concreta delle faccende domestiche, nel tentativo di placare ansie e paure.

Per altri partecipanti, invece, la malattia non sembra offuscare il desiderio di continuare a vivere il tempo che resta a pieno, mettendo in luce come anche in prossimità della morte possano rimanere in questa tipologia di pazienti un’attitudine positiva e speranza verso il futuro (Walker et al., 2019; Bonafede et al., 2020).

Camilla: Cerco di distrarmi, di dare spazio alle cose che mi piacciono, ai sogni che ancora ho. Sognare non è mica proibito.

L’indagine in profondità delle interviste si è rivelata particolarmente utile mettendo in luce alcune tematiche non emerse dalla revisione sistematica della letteratura: In particolare, le analisi condotte hanno riscontrato la presenza in alcuni malati di MM di un vissuto invalidante di vergogna, che appare intimamente connesso alla tendenza a evitare di parlare e pensare alla malattia, così come alla diminuzione degli scambi sociali. Sono emersi, inoltre, intensi sentimenti conflittuali provati sia nei confronti dei propri familiari, sia in relazione ai trattamenti medici e all’*équipe* curante, che portano i malati a non sentirsi riconosciuti e compresi sperimentando così vissuti di sconforto, smarrimento, abbandono e una graduale compromissione del senso di fiducia.

Studio 2: Costruzione e validazione preliminare del questionario

Mesothelioma Psychological Distress Tool (MPDT)

Il processo di costruzione del questionario MPDT ha preso le mosse dai costrutti che caratterizzano la sofferenza psicologica dei malati di MM identificati dalla revisione sistematica della letteratura.

In accordo con Preacher e colleghi (2002) “dato che le limitazioni sulle dimensioni del campione sono spesso inevitabili, è preferibile che i ricercatori limitino il più possibile il numero di fattori oggetto di studio” (Preacher et al. 2002, p. 153, *trad. mia*). Per questa ragione, a fronte delle caratteristiche intrinseche della patologia precedentemente descritte e considerato l’elevato tasso di drop out presente nelle ricerche pari a circa il 30% (Saita et al., 2011), ancor più elevato in popolazioni oncologiche (Salahudeen et al., 2014), si è deciso di escludere il fattore “*Factors affecting the quality of life*” per due principali ordini di motivi:

- la qualità di vita è un costrutto trasversale a numerose patologie cancerogene, per il quale sono è presente in letteratura un’ampia gamma di strumenti validati;
- la revisione della letteratura in realtà mette in luce i fattori che possono incrementarne la qualità, tra cui la partecipazione a gruppi di supporto e il sostegno sociale. Il celebre studio di Moore et al. (2008) dal titolo “*Hands of Time: the experience of establishing a support group for people affected by mesothelioma*” ha evidenziato come la partecipazione a questi gruppi permetta di migliorare il processo di adattamento alla patologia oncologica e rafforzare le strategie di coping, incrementando così la qualità di vita residua delle persone affette da MM e dei loro caregivers. Risultati analoghi emergono anche dagli studi italiani (Borgogno et al., 2015; Granieri et al., 2018) che riportano che tutti i partecipanti hanno ritenuto che i gruppi siano stati utili in quanto momento di condivisione con altre persone che stavano sperimentando le stesse problematiche, e di confronto rispetto le modalità di fronteggiamento della sintomatologia presente aiutandoli a muoversi meglio con gli effetti della malattia e dei suoi trattamenti.

I 4 costrutti rimanenti sono stati successivamente operazionalizzati, ossia scomposti in sotto-costrutti che rappresentano indicatori osservabili della variabile psicologica presa in esame. Attraverso questo processo, dunque, è stato possibile individuare quei comportamenti che permettono di rilevare la presenza di una caratteristica psicologica in una persona (Chiorri, 2011). La Tabella 3 riporta il processo di operazionalizzazione.

DOMINIO	FACET	SUBFACET	AUTORI
1. Impatto psicologico della diagnosi di MM	▪ Sintomi di PTSD	• Pensieri/emozioni negative associate alla diagnosi	• Clayson et al., 2005; Granieri, 2015, 2016, 2017; Dooley et al., 2010; Guglielmucci et al., 2014, 2015, 2018a,b; Borgogno et al., 2015; Bonafede et al., 2018, 2020; Taylor et al., 2019
		• Sintomi di re-experiencing	
		• Iperarousal	
	▪ Depressione	• Tristezza • Mancanza di speranza/pessimismo • Perdita di interessi • Colpa • Sentimento di impotenza	• Lebovits et al., 1983; Dooley et al., 2010; Moore et al., 2010; Arber & Spencer, 2013; Granieri et al., 2013; Guglielmucci et al., 2014, 2015, 2018a,b; Borgogno et al., 2015; Ball et al., 2016; Bonafede et al., 2020
	▪ Ansia	• Ansia anticipatoria (paura di morire, Sindrome di Damocle) • Ansia somatica (irrequietezza) • Preoccupazioni per la famiglia • Preoccupazioni per i trattamenti	• Lebovits et al., 1983; Hawley & Monk., 2004; Chapple et al., 2004; Clayson et al., 2005; Granieri, 2015, 2016, 2017; Dooley et al., 2010; Moore et al., 2010; Arber & Spencer, 2013; Guglielmucci et al., 2014, 2015, 2018a,b; Borgogno et al., 2015; Ball et al., 2016; Bonafede et al., 2018

2. Aspetti emotivi legati al contesto lavorativo	▪ Sentimenti di incredulità	▪ Confusione ▪ Dispercezione del rischio ▪ Perdita di fiducia ▪	▪ Lebovits et al., 1981, 1983; Clayson et al., 2005; Guglielmucci et al. 2014; Granieri 2016, 2017
	▪ Colpa	▪ Senso di colpa per sé stessi/ rimorso ▪ Senso di colpa per gli altri / responsabilità	▪ Lebovits et al, 1983; Guglielmucci et al., 2014; 2015, 2018a,b; Borgogno et al., 2015; Ball et al., 2016; Granieri, 2017; Hughes & Arber, 2008
	▪ Senso di comunità	▪ Appartenenza ▪ Affiliazione/fedeltà ▪ Senso di sicurezza ▪ Coinvolgimento emotivo ▪ Coesione	▪ Clayson et al., 2005; Granieri, 2015; Borgogno et al., 2015; Ball et al., 2016; Guglielmucci et al., 2014, 2018a,b; Bonafede et al., 2018; Bultjens et al., 2015
	▪ Rabbia	▪ Senso di tradimento ▪ Desiderio di vendetta ▪ Aggressività verso la fonte dell'esposizione	▪ Lebovits et al., 1981; Borgogno, 2014; Guglielmucci et al., 2014, 2015, 2018 a,b; Borgogno et al., 2015; Ball et al., 2016; Bultjens et al., 2015
	▪ Bisogno di compensazione	▪ Vissuto di ingiustizia ▪ Distress emotivo connesso ad aspetti legali/economici	▪ Hughes & Arber, 2008; Dooley et al., 2010 Ball et al., 2016; Guglielmucci et al., 2014,2018a,b

3. Strategie di coping	▪ Strategie disfunzionali	▪ Evitamento/isolamento ▪ Diniego ▪ Minimizzazione ▪ Somatizzazione	▪ Lebovits, et al., 1981,1983; Granieri, 2008; Arber & Spencer, 2012; Kao et al., 2013; Guglielmucci et al., 2014, 2018b, Bonafede et al., 2018a,b; Sherborne, 2020
	▪ Strategie funzionali	▪ Strategie di problem solving ▪ Supporto sociale ▪ Attitudine positiva/ottimismo	▪ Nowak et al., 2004; Clayson et al., 2005; Moore et al., 2008; Hughes et al., 2008; Arber & Spencer, 2012; Guglielmucci et al., 2018a,b; Girgis et al., 2019; Walker et al., 2019
4. Esperienza dei pazienti col trattamento	▪ Sconforto	▪ Mancanza di fiducia	▪ Nowak et al., 2004; Clayson et al., 2005; Bertero et al., 2008; Ribi et al., 2008; Arber & Spencer, 2012; Guglielmucci et al., 2015, 2018a,b; Girgis et al., 2019; Taylor et al., 2019; Warby et al., 2019; Sherborne et al., 2020
	▪ Paura dei trattamenti	▪ Incertezza	▪ Clayson et al., 2005; Ribi et al., 2008; Arber & Spencer, 2012; Guglielmucci et al., 2015, 2018 a,b; Ball et al., 2016; Bonafede et al., 2018

Tab. 3: Operazionalizzazione dei costrutti individuati dalla review della letteratura. Per ciascun sub-facet riportano le principali ricerche (ricerche originali e revisioni sistematiche della letteratura pubblicate su riviste peer-review. Sono esclusi monografie, curatele, capitoli di libro e letteratura grigia.

:

Fase di costruzione degli item

Il processo di operazionalizzazione dei costrutti individuati dalla revisione è stato seguito dalla fase di scrittura degli item. Nella costruzione degli item è buona norma ridurre al minimo l'ambiguità, costruire stimoli specifici e non generali, e assicurarsi della centralità del contenuto in relazione al costrutto che si vuole rilevare e al contesto nel quale sarà utilizzato (Chiorri, 2011). Per questa ragione, l'articolazione grammatica-lessicale utilizzata ha tenuto conto delle caratteristiche peculiari della popolazione target (i.e. mediamente soggetti anziani, con un livello medio-basso di scolarizzazione) in modo da rendere gli item il più possibile chiari e comprensibili e ridurre al minimo possibili distorsioni nel processo di risposta (Rammstedt & Kemper, 2011; Ziegler, 2014).

Poiché l'obiettivo prioritario del presente lavoro è quello di costruire un questionario valido e attendibile, breve e autosomministrabile, si è deciso di optare per domande chiuse. In accordo con Cronbach (1951) "un numero dispari di alternative favorisce stili di risposta sistematica indipendenti dal contenuto dell'item, con tendenza alla scelta del punto centrale" (p. 427, *tr. mia*). Un numero di risposte pari è parso dunque preferibile in quanto induce l'individuo a scegliere tra una delle opzioni proposte, riducendo così l'effetto centrale e l'acquiescenza (Chiorri, 2011). Si è deciso di optare quindi per domande chiuse con modalità di risposta su scala di tipo Likert a 4 punti (*1= per niente d'accordo; 2= poco d'accordo; 3= molto d'accordo; 4=completamente d'accordo*).

Un gruppo di ricercatori e clinici esperti (N=6) provenienti dal Dipartimento di Psicologia dell'Università di Torino, dal Dipartimento di Scienze della Formazione dell'Università di Genova e dal Dipartimento di Medicina, Epidemiologia, Igiene del Lavoro e Ambientale dell'INAIL si è occupato della creazione di un *pool* di item per ciascun costrutto individuato dalla revisione sistematica della letteratura e ogni sua dimensione (N=218). Per la scrittura degli item sono stati identificati reattivi psicologici validati che indagassero il medesimo dominio e sono stati utilizzati come modello.

I criteri utilizzati per la formulazione degli item sono stati (Chiorri, 2011):

1. Utilizzo di frasi corte, congruenti e univoche, volte a quantificare una singola dimensione/sottodimensione per volta;
2. Evitamento di domande suggestive, insinuazioni e/o assunzioni implicite.
3. Preferenza per la formulazione positiva, chiara e diretta.
4. Adeguamento del linguaggio alle competenze linguistiche dei soggetti e al livello di scolarizzazione della popolazione target (es. evitamento delle negazioni,), in modo da favorire una maggior comprensibilità globale.

Approccio multi-metodo per valutare la validità di contenuto

La rilevazione della validità di contenuto (i.e. rilevanza e rappresentatività degli item rispetto al costrutto oggetto di indagine) è stata effettuata attraverso un approccio multi-metodo basato su strategie qualitative e quantitative.

Per accrescere e ampliare quanto emerso dall'analisi della letteratura, sono stati condotti due focus group a Roma e Alessandria (moderatori: Michela Bonafede e Fanny Guglielmucci). L'applicazione di tale metodologia consente di incrementare la validità di contenuto, migliorando la pertinenza e rappresentatività degli item (Vogt et al., 2004). Ai focus group hanno preso parte un gruppo eterogeneo di esperti (N=19; oncologi, medici del lavoro, medici palliativisti, psicologi, ricercatori universitari, intervistatori esperti COR e SPRESAL) e un gruppo di soggetti della popolazione target (N=8). All'inizio di ciascun focus group è stata fornita ai partecipanti una definizione di ciascun costrutto oggetto di indagine, che ha rappresentato il punto iniziale della discussione. Ai partecipanti è stato chiesto di esprimere quanto considerassero rilevanti, rappresentativi e chiari gli item ai fini della rilevazione di quello specifico costrutto/dimensione. Le informazioni raccolte hanno portato alla ridefinizione dei costrutti iniziali, all'eliminazione di 79 item, alla modifica di 46 item considerati poco chiari o mal formulati e all'introduzione di 12 item aggiuntivi (N=151).

Nello specifico, il secondo costrutto relativo agli “*Aspetti emotivi connessi al contesto lavorativo*” è stato ridefinito (i.e. “*Aspetti emotivi connessi al contesto di esposizione*”, considerando anche l’esposizione ambientale/familiare, corrispondente a circa un terzo del totale (Marinaccio et al., 2018). È emerso il dominio “*Stigma sociale*”, inteso come un vissuto stigmatizzante e di vergogna provato dai malati, che spesso si sentono giudicati negativamente dalla comunità ed evitati per la loro condizione. Questo aspetto, in realtà, era già stato rilevato in modo aneddótico (Chapple et al., 2004; Hughes & Arber., 2008; Granieri & Borgogno, 2014), ed appare in linea con i risultati dello Studio 1. Infine, è emersa la dimensione “*Sensazione di sentirsi persi*” rispetto ai trattamenti, intesa come la confusione provata dai malati circa il decorso clinico e le modalità di cura e il vissuto di spaesamento provato a causa della mancanza di informazioni chiare. Tale dimensione non era emersa dall’analisi della letteratura di partenza, probabilmente poiché la revisione aveva preso in considerazione articoli sino a ottobre 2016. Tuttavia, tale dato appare in linea con le ricerche successive e più recenti (Nagamatsu et al., 2019; Girgis et al., 2019; Taylor et al., 2019, Warby et al., 2019; Sherborne et al., 2020) e con i risultati delle interviste in profondità condotte (Studio 1).

Per valutare quantitativamente la validità di contenuto del test è stata utilizzata la Subject Matter Experts Methodology (SME) (Chiorri, 2011). A tal fine, è stata predisposta una griglia di valutazione composta da una breve descrizione scritta del costrutto oggetto di indagine e da una check-list di rilevanza di ciascun item su una scala di tipo Likert a 3 punti (*1 = per nulla rilevante, 2 = abbastanza rilevante, 3 = molto rilevante*) su una scala di tipo Likert a 3 punti (*1 = per nulla rilevante, 2 = abbastanza rilevante, 3 = molto rilevante*). Sono stati contattati via mail/telefono 52 esperti, di questi 33 (64,7%; 17 professionisti sanitari e 16 soggetti della popolazione target) sono stati invitati a valutare il grado di rilevanza di ciascun item su una scala di tipo Likert a 3 punti (*1 = per nulla rilevante, 2 = abbastanza rilevante, 3 = molto rilevante*). In media per ogni item è stato valutato da 2,20 esperti, per 3.851,40 valutazioni. Gli item con un punteggio di $3 \geq 2/1$ sono stati inclusi nella versione pilota del questionario.

Il processo di raffinamento ha portato all’individuazione di 41 item (Appendice). Al fine di ridurre l’effetto di prossimità gli item sono stati localizzati in modo casuale all’interno del questionario.

Disegno dello studio

La somministrazione del questionario è avvenuta attraverso un disegno multicentrico in più fasi: 1) approvazione del progetto di ricerca da parte del Comitato Etico dell'Ateneo di Torino e del Comitato Etico dell'Ospedale Santo Spirito di Casale Monferrato e dell'Azienda Ospedaliera Nazionale SS. Antonio e Biagio e Cesare Arrigo di Alessandria; 2) contatto e richiesta di adesione ai Centri Operativi Regionali (COR) del ReNaM, alle aziende sanitarie locali e ospedaliere preposte alla diagnosi e cura del MM delle regioni coinvolte nel progetto (Toscana, Piemonte, Lombardia e Lazio); fase 3) formazione di intervistatori ReNaM (N=17) e del personale psicologico ove presente (N=5) alla somministrazione del questionario e alla raccolta dati (marzo-giugno 2018); 4) somministrazione del questionario nei centri che hanno mostrato interesse a prendere parte allo studio (giugno 2018-settembre 2019).

I questionari sono stati somministrati nei seguenti centri sperimentatori:

- Lazio: COR Lazio, ASL Roma 6, ASL Roma 3
- Toscana: Istituto per lo studio, la prevenzione e la rete oncologica (ISPRO)
- Lombardia: COR Lombardia (Fondazione IRCCS Ca' Granda - Ospedale Maggiore Policlinico)
- Piemonte: COR Piemonte, SS Mesoteliomi (unità interaziendale ASL AL-ASO AL).

Il campionamento è stato di tipo casuale semplice, continuativo, su base volontaria. Per ogni soggetto è stato raccolto un consenso informato scritto. La somministrazione è avvenuta in modalità individuale da parte del personale precedentemente formato. È stata predisposta una scheda separata di raccolta dati sociodemografici e medici (Appendice).

I dati sono stati raccolti in forma anonima e analizzati in forma aggregata. Insieme al questionario MPDT è stata somministrata una scheda di raccolta dati clinici e socio-anagrafici in cui ciascun soggetto è stato codificato attraverso l'ID presente nel ReNaM (Appendice).

Caratteristiche del campione

Il campione è composto da 149 soggetti, la Tabella 4 riporta le frequenze e le percentuali relative alla loro provenienza.

Variabili	Statistiche
Età (anni, M±SD, range)	70,02±9,68 (41-88)
Genere (N, %)	
<i>Donne</i>	61 (41,22%)
<i>Uomini</i>	73 (49,32%)
<i>Mancanti</i>	14 (9,46%)
Educazione (anni, M±SD)	9,98±4,43
<i>Mancanti</i>	14 (9,5%)
Stato civile (N, %)	
<i>Single</i>	16 (10,81%)
<i>Sposati</i>	90 (60,81%)
<i>Divorziati</i>	8 (5,41%)
<i>Vedovi</i>	18 (12,16%)
<i>Ecclesiastici</i>	1 (0,68%)
<i>Mancanti</i>	15 (10,14%)
Posizione cancro	
<i>Pleura</i>	129 (87,16%)
<i>Peritoneo</i>	5 (3,38%)
<i>Pericardio</i>	1 (0,68%)
<i>Mancanti</i>	13 (8,78%)
Esposizione	
<i>Solo occupazionale</i>	54 (36,49%)
<i>Solo ambientale</i>	45 (40,41%)
<i>Occupazionale + Ambientale</i>	8 (5,41%)
<i>Sconosciuto</i>	13 (8,78%)
<i>Ambientale + Familiare</i>	2 (1,35%)
<i>Mancanti</i>	26 (17,57%)

Tab. 4: Caratteristiche socio-demografiche e cliniche del campione

I malati hanno un'età media di 70,02 anni (SD=9,68) e sono prevalentemente maschi (N=73; 49,32%), sposati (N=90, 60,81%), con un tasso di scolarità basso (M=9,98±4,43anni). L'87,16% di loro ha una diagnosi di MPM. Consideranti i dati provenienti dal lavoro di sorveglianza epidemiologica nazionale riportati nel VI Rapporto ReNaM (2018) il campione appare rappresentativo della popolazione generale. Il rapporto evidenzia la presenza di 27.356 casi registrati nel periodo 1993-2015, di cui 22.003 (80,4%) certi. I casi certi registrati nel periodo 2013-2015 sono pari a 2.563 (con una media di 996.3 casi/anno), il 2015 viene indicata come data a partire dalla quale si assiste a una stabilizzazione dell'incidenza (e della mortalità) della malattia (Marinaccio et al., 2018). Considerando tali dati e in relazione al periodo di reclutamento (15 mesi), è ragionevole ipotizzare un numero complessivo di casi certi sul territorio nazionale pari a 1.245 casi. Il nostro campione, sebbene di ridotte dimensioni, rappresenta quindi il 11,88% della popolazione target.

Analisi dei dati

È stata operata una strategia di analisi in 2 fasi: 1) selezione degli item e verifica dell'unidimensionalità delle scale; 2) testare la bontà del modello generale. Le analisi sono state condotte utilizzando il software R, library blavaan (Merkle & Rosseel, 2018). Considerata la struttura multilivello dei dati e la relativa ridotta ampiezza campionaria è stato utilizzato un modello di equazioni strutturali bayesiano⁶ (*Bayesian Structural Equation Modeling* – BSEM) gerarchico per variabili ordinate categoriali (Depaoli & Clifton, 2015). Meno utilizzati rispetto metodi tradizionali, i BSEM permettono di ottenere informazioni più accurate rispetto alla struttura fattoriale delle scale (de Beer & Bianchi, 2019), avvalendosi di informazioni a priori che consentono di stimare in modo più accurato i parametri (Asparouhov et al., 2015), particolarmente in campioni di ridotte dimensioni (MacCallum et al., 1999; Garrard, 2015). Rispetto ai modelli tradizionali di

⁶ Mentre nell'approccio tradizionale frequentista si fanno assunzioni sulla possibile distribuzione di dati non osservati e si determina quante volte l'osservazione cade in un certo intervallo (intervallo di confidenza), in quello bayesiano si attribuisce a priori una certa probabilità ad un dato evento in base alla conoscenza pregressa, successivamente sulla base dei dati osservati il ricercatore "aggiusta" la probabilità a priori (*prior*) per arrivare a una probabilità a posteriori (*posterior*) che il vero valore del parametro sia contenuto all'interno di un certo intervallo (intervallo di credibilità) (Cowan, 1998; Kruschke, 2015)

analisi, inoltre, essi si rivelano più pratici e flessibili (Muthén & Asparouhov, 2012) e non necessitano di escludere le correlazioni tra i residui che possono esistere tra i diversi item, consentendo così al ricercatore di tenere conto della possibile influenza sugli item di altri fattori, quali wording (e.g., item con una struttura lessicale simile) e contenuto (e.g., item con un contenuto simile) (Asparouhov et al., 2015).

La coerenza interna delle scale è stata calcolata attraverso l'omega di McDonald's (McDonald, 1999), una misura dell'attendibilità composita all'interno di un modello fattoriale congenerico. Nel caso in cui la somma dei punteggi grezzi degli item determini un punteggio globale di scala tale misura risulta particolarmente appropriata per stimarne l'attendibilità (Bentler, 2007) e rappresenta una migliore alternativa rispetto all'alpha di Cronbach's (McNeish, 2018). Sono stati inoltre calcolati gli intervalli di confidenza al 95% in accordo con Raykov (2002).

La selezione degli item è avvenuta attraverso un'analisi bayesiana fattoriale confermativa (*Confirmatory Factor Analysis – CFA*) (Brown, 2015) a singolo fattore (i.e. ciascun item è stato imputato sulla scala di appartenenza). I modelli sono stati stimati con 4000 iterazioni e un burn in di 500 in tre catene MCMC⁷. Vista la scarsa conoscenza del fenomeno sono state utilizzate prior non informative; nello specifico una Normale (0,10) sui λ , una Beta (1,1) sulle covarianze, una Normale (0,32) sulle intercette e una Gamma (1,5) sulle varianze come suggerito in letteratura (Merkle & Rosseel, 2018). Per ciascun item sono stati calcolati i loading fattoriali (λ), le correlazioni multiple al quadrato (squared multiple correlations - SMCs) e le correlazioni item-totale corrette (corrected item-total correlations - r_{CI-T}). Sono stati considerati adeguati solo gli item con loading fattoriali $<.40$; $r_{CI-T} <.40$ e $SMC <.10$ (Kline, 2015; Tabachnick, 2007). Infine, in accordo con Kruschke (2018) è stato calcolato il Highest Density Interval (HDI) per ciascun item e la sua relazione con una Region Of Practical Equivalence (ROPE)⁸. In questo lavoro la

⁷ I modelli bayesiani utilizzano le tecniche Markov Chain Monte Carlo (MCMC), metodi di simulazione che consentono di generare campioni random a partire dalla distribuzione a posteriori di probabilità per stimare i parametri. In questo lavoro, data la natura multivariata dei dati è stato utilizzato l'algoritmo di Gibbs per campionare le MCMC. La convergenza del modello (i.e. numero sufficiente di campioni estratti dalla distribuzione a posteriori necessario per stimare in modo accurato i parametri)

⁸ L'HDI è un intervallo di valori (intervallo di credibilità) che copre il 95% della distribuzione a posteriori e comprende i valori maggiormente credibili del parametro (ovvero i migliori stimatori del parametro); mentre la ROPE è una regione situata intorno al valore nullo del parametro (Kruschke, 2015), generalmente decisa dallo sperimentatore in base alle informazioni pregresse o di assunzioni teoriche. I valori che ricadono in questa regione possono quindi essere considerati equivalenti al valore nullo.

ROPE è stata fissata a $\delta = \pm 0.1$, sulla base di metà valore di un effect size standardizzato piccolo calcolato secondo i tradizionali parametri di Cohen (.20). Gli item i cui HDI contenevano la ROPE sono stati esclusi, quelli i cui HDI erano sufficientemente distanti dalla ROPE sono stati mantenuti, infine per quelli i cui HDI contenevano solo parzialmente la ROPE sono stati considerati gli altri indici per deciderne l'eliminazione/mantenimento (Kruschke, 2018). Le scale con un numero di item ≤ 2 sono state escluse dal modello poiché non garantiscono un'adeguata copertura del costrutto (Tabachnick, 2007).

Successivamente, è stata testata la bontà del modello generale è stata testata attraverso una CFA su tutte le scale e tutti gli item sopravvissuti. Per testare l'adeguatezza di un modello attraverso i BSEM generalmente vengono considerati i Posterior Predictive p-value (PPP), che rilevano la percentuale del valore del chi-quadro dei dati simulati che eccede i dati osservati. Un valore basso (PPP <.05) indica che il modello fallisce nello spiegare i dati, valori elevati (PPP >.50) e 95% CI che includono lo 0 sono indicativi di un fit eccellente (Muthén & Asparouhov, 2012). Recentemente, alcuni autori hanno tentato di adattare i principali indici di fit dei SEM ai BSME, mostrando l'utilità di considerare il valore medio, l'intervallo di credibilità al 90-95% sulla Posterior Predictive Distribution (PPD) e permettendo una quantificazione della variabilità del fit fra i diversi processi di iterazione. (Levy, 2011), anche in caso di campioni piccoli e prior non informative (Garnier-Villarreal & Jorgensen, 2020). Poiché risulta più appropriato utilizzare una strategia che combini differenti indici di fit, è stata calcolata la versione bayesiana dei seguenti indici: GammaHat, Root Mean Error of Approximation (BRMSEA) e Standardized Root Mean Square Residual (BSMRS). In particolare, si è scelto di utilizzare il GammaHat al posto del più utilizzato Comparative Fit Index (CFI) poiché non sensibile all'ampiezza campionaria, alla complessità del modello e alla sua misspecification (Fan & Sivo, 2007). Per completezza è stato riportato anche il AdjGammaHat, di cui non esiste un cut-off specifico. Sono stati considerati adeguati modelli che soddisfano le seguenti condizioni = Bayesian GammaHat >.90; BRMSEA <.06; BMRS <.08 (Hu & Bentler, 1999).

Risultati del processo di validazione preliminare

La Tabella sottostante riporta i valori relativi all'item analysis e alle singole scale. La scala Belonginess (2 item; i07_*Nonostante abbia lavorato/vissuto in un luogo contaminato che mi ha esposto a un rischio di salute sento ancora un forte legame con l'azienda/con il territorio*; i35_*Nel complesso penso che la mia azienda/le istituzioni non mi abbiano poi trattato così male*) è stata esclusa dalle analisi.

Scale	Omega (95% CI)	λ	95% HDI	rCI-T	SMC
Depressione	.77 (.71-84)				
i01		.620	.491-.761	.71	.56
i30		.812	.631-.998	.65	.52
i41		.509	.346-.671	.47	.23
Ansia	.69 (.60-.77)				
i02		.507	.335-.683	.27	.08
i27		.650	.513-.806	.47	.31
i31		.626	.468-.786	.54	.33
PTSD	.72 (.65- .80)				
i03		.523	.359-.696	.48	.27
i04		.627	.440-.814	.48	.25
i23		.739	.567-.920	.62	.43
i32		.473	.284-.667	.45	.27
Rabbia	.84 (.80-.88)				
i5		.712	.519-.906	.61	.39
i19		.898	.708-1.102	.76	.61
i28		.644	.444-.851	.52	.27
i33		.940	.748-1.143	.67	.52

Vergogna	.76 (.68-.83)				
i6		.523	.352-.699	.54	.29
i20		.316	.199-.441	.59	.35
i34		.403	.265-.538	.59	.35
Colpa	.63 (.50-.75)				
i8		.243	.071-.417	.40	.26
i17		.636	.373-.859	.48	.28
i36		.126	-.040-.302	.18	.04
Giustizia	.82 (.77-.87)				
i9		.847	.639-1.068	.69	.50
i15		.694	.477-.927	.54	.40
i24		.905	.708-1.111	.61	.39
i37		.749	.521-.990	.47	.27
Coping disfunzionale	.11 (.00-.36)				
i10		.190	.028-.377	.06	.01
i25		.232	.026-.476	.07	.01
i38		.310	.135-.507	.03	.00
Coping funzionale	.79 (.74-.85)				
i11		.646	.490-.803	.68	.58
i13		.420	.260-.593	.53	.31
i18		.792	.652-.940	.74	.66
i21		.685	.534-.843	.54	.54
i26		.327	.175-.484	.32	.20
i29		.164	-.018-.351	.24	.13
i39		.313	.128-.495	.26	.23

Esperienza soggettiva del trattamento	.51 (.38; .63)				
i12	.475	.300-.656	.52	.29	
i14	.319	.101-.545	.28	.14	
i16	.324	.113-.545	.26	.18	
i24	.274	.064-.479	.05	.05	
i40	.560	.393-.739	.47	.31	

Tab 5: Attendibilità delle scale, item analysis (corrected item-total correlation - rCI-T, squared multiple correlations - SMC, factor loading ($\hat{\lambda}$), posterior 95% High Density Interval (HDI). Gli item in grassetto sono stati esclusi dalla versione finale dello strumento

I risultati delle analisi condotte evidenziano alcuni item critici (item n. 10, 14, 16, 22, 225, 36, 38, 39), che non soddisfano i criteri di mantenimento. Nello specifico, gli item 20 (“*Mi vergogno per essermi ammalato*”) e 36 (“*Mi rimprovero di non essere andato via dal luogo di lavoro/dove vivo*”) presentano bassi loading (rispettivamente .316 e .126) sulla scala e la ROPE ricade negli HDI, inoltre l’i36 appare problematico e non sembra indagare in modo adeguato il costrutto ($r_{CI-T}=.18$ e $SMC=.04$). Similmente, gli item 14, 16, 22.

L’eliminazione di tali item ha comportato l’esclusione delle seguenti scale: Shame (2 soli item sopravvissuti), Guilt (2 soli item sopravvissuti), Disfunctional Coping (nessun item sopravvissuto), Subjective Experience of Treatments (2 soli item sopravvissuti), poiché non raggiungono un numero minimo di item necessario per indagare il costrutto in modo adeguato. Inoltre, tre item della scala Functional Coping, (i26_ “*Parlo con gli operatori sanitari per comprendere meglio la mia situazione medica*”; i29_ “*Cerco sostegno dalle persone che mi stanno vicino*”; i39_ “*Affronto quello che viene, passo dopo passo*”) mostrano qualità psicometriche non adeguate ($\lambda < .40$; ROPE all’interno degli HDI), la loro rimozione ha comportato un incremento dell’attendibilità della scala ($\omega=.83$; 95% CI=.69-.95). Tutti gli altri item mostrano qualità psicometriche adeguate e sono quindi stati inclusi nelle successive analisi e nella versione finale dello strumento (Appendice). L’unica eccezione è data dall’item 2 (“*Ho sentito spesso una forte agitazione interna*”), che presenta una correlazione più debole con il punteggio totale di scale ($r_{CI-T}=.27$) e un $SMC < .10$. Tuttavia, poiché gli altri indici risultano adeguati ($\lambda = .507$; ROPE non contenuto nell’HDI) e poiché la sua eliminazione comporterebbe l’eliminazione dell’intera scala (item < 3) con si è scelto di conservare l’item⁹.

⁹ In accordo con Ziegler (2014, 2020), infatti, nella costruzione di un test il ricercatore dovrebbe integrare l’utilizzo di criteri statistici, con considerazioni di natura teorico-clinica, senza tralasciare lo scopo per cui esso è stato costruito. Poiché il MPDT è volto a valutare il disagio psichico e i bisogni dei malati di MM, l’eliminazione della scala Anxiety avrebbe importanti ricadute negative da un punto di vista clinico, non consentendo di raccogliere informazioni preziose circa la risposta emotiva dei malati di fronte alla malattia e inficiando così la possibilità di disegnare interventi clinici maggiormente specifici ed efficaci.

L'analisi confermativa condotta sugli item e sulle scale sopravvissute mostra un buon adeguamento del modello ai dati: i valori di tutti gli indici considerati appaiono al di sotto dei cut-off tradizionalmente utilizzati in letteratura. La Tabella 6 presenta i risultati del BSEM con prior non informative, i valori medi e le deviazioni standard degli indici di fit, il $PPP\chi^2$ e i relativi intervalli di credibilità al 90%.

Indice	M (SD)	90% CI
PPP χ^2	.0633 (.007)	0.44 - .073
BRMSEA	.0577 (.007)	0.53 - .64
BSRMR	.080 (.008)	.067 - .097
Gamma Hat	.902 (.006)	.890 - .912

Tab 6 Indici di Fit del modello

Si riportano i loading degli item e i relativi intervalli di credibilità (Tab. 7), i cross-loading (Tab. 8).

Scale	λ	95% HDI
Depressione		
i01	.634	.498-.784
i30	.878	.709-1.057
i41	.489	.316-.675
Ansia		
i02	.513	.337-.702
i27	.669	.536-.827
i31	.688	.524-.860
PTSD		
i03	.544	.371-.726
i04	.635	.442-.831
i23	.759	.580-.942
i32	.486	.304-.676

Rabbia		
i5	.753	.556-.947
i19	.911	.718-1.107
i28	.653	.447-.865
i33	.905	.708-1.110
Giustizia		
i09	.792	.595-1.000
i15	.650	.442-.884
i24	.915	.721-1.115
i37	.783	.571-1.007
Coping funzionale		
i11	.613	.462-.765
i13	.395	.241-.556
i18	.814	.674-.960
i21	.674	.514-.841

Tab. 7: Factor Loading

Item	DEP	ANS	PTSD	RABBIA	GIUSTIZIA	COP FUN
i01	.715					
i30	.777					
i41	.482					
i02		.457				
i27		.682				
i31		.649				
i03			.532			
i04			.573			
i23			.713			
i32			.450			
i05				.645		
i19				.756		
i28				.551		
i33				.743		
i09					.679	
i15					.541	
i24					.774	
i37					.589	
i11						.662
i13						.421
i18						.886
i21						.668

Tab.8: Factor Loading sul modello

La figura 5 mostra il modello finale del MPDT. Le scale Ansia, Depressione e PTSD appaiono fortemente correlate tra loro; così come le scale Rabbia e Giustizia. Tali dati appaiono in linea con il processo di operazionalizzazione e costruzione del questionario: depressione, ansia e vissuti post-traumatici infatti sono sotto-dimensioni del costrutto “Impatto psicologico della diagnosi di MM”; similmente la rabbia per aver contratto la malattia e il bisogno di ottenere giustizia riflettono i vissuti emotivi connessi all’eziologia

della malattia (Costrutto “Vissuti emotivi connessi al contesto di esposizione “). Inoltre, in linea con la letteratura, la scala Functional Coping appare negativamente correlata con Ansia e Depressione, e in misura minore con PTSD ($r=-0.246$, IC=-0.44 ; -0.037) (Tab. 9).

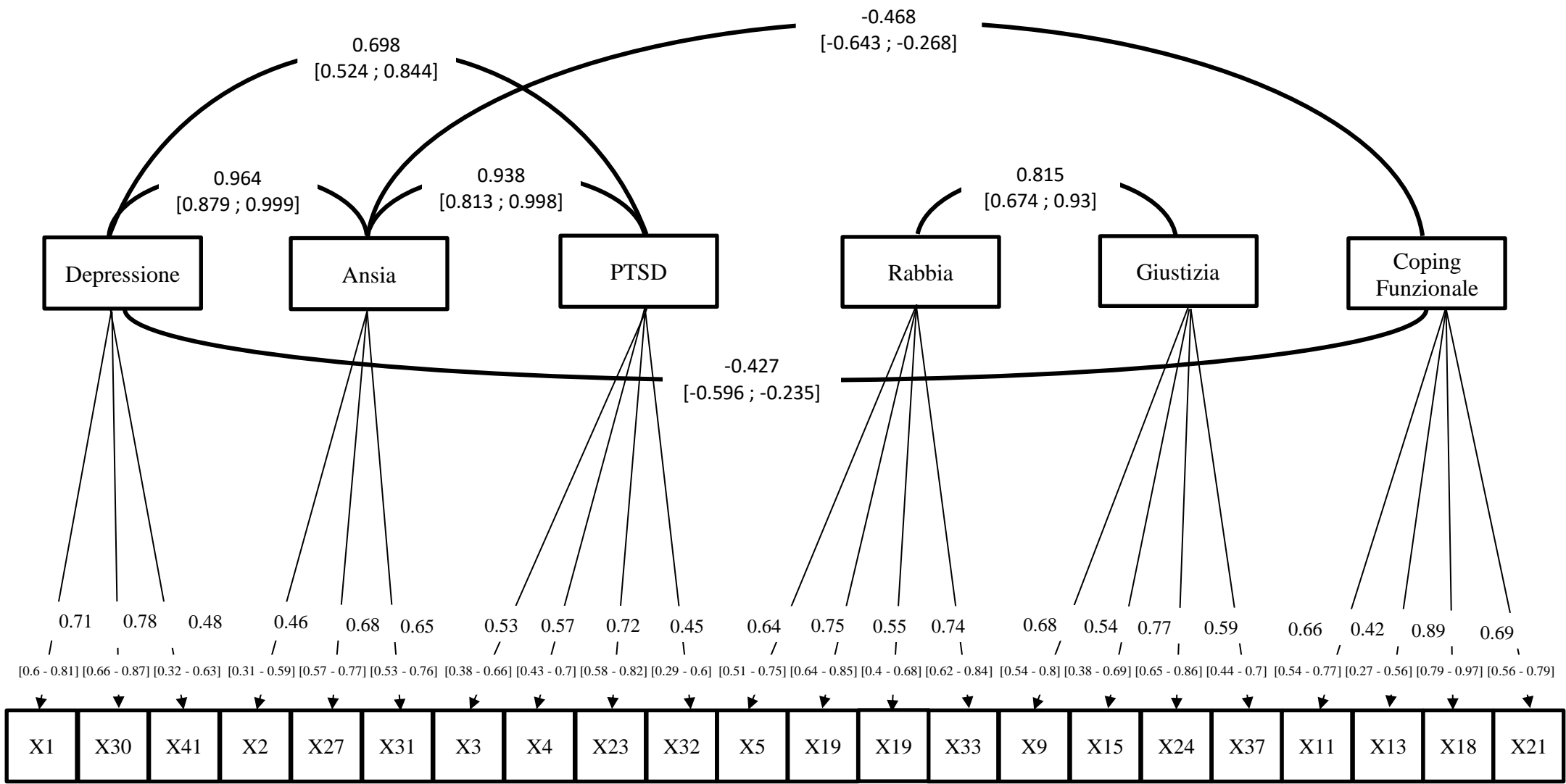


Fig. 5: Versione finale dello strumento MPDT

	Depressione	Ansia	PTSD	Rabbia	Giustizia	Coping Funzionale
Depressione	1					
Ansia	0.964 [0.879 ; 0.999]	1				
PTSD	0.698 [0.524 ; 0.844]	0.938 [0.813 ; 0.998]	1			
Rabbia	0.179 [-0.033 ; 0.387]	0.24 [0.01 ; 0.466]	0.258 [0.031 ; 0.469]	1		
Giustizia	-0.061 [-0.275 ; 0.164]	0.009 [-0.228 ; 0.245]	-0.042 [-0.265 ; 0.187]	0.815 [0.674 ; 0.93]	1	
Coping Funzionale	-0.427 [-0.596 ; -0.235]	-0.468 [-0.643 ; -0.268]	-0.246 [-0.44 ; -0.037]	-0.025 [-0.224 ; 0.181]	0.128 [-0.083 ; 0.329]	1

Tab.9: Correlazioni tra i costrutti latenti

Conclusioni

In questo lavoro è stato posto in luce come il MM abbia un impatto devastante non solo per la salute fisica dei pazienti, ma anche per il loro benessere psichico. Lo scopo principale è stato costruire una misura multidimensionale della sofferenza psicologica dei malati di MM, di facile comprensione e veloce da somministrazione considerata l'età media dei pazienti e il medio-basso livello di scolarizzazione.

La strategia di analisi utilizzata ha portato a un affinamento degli item arrivando a una versione più parsimoniosa dello strumento (da 41 a 22 item), che sembra possedere buone qualità psicometriche. Le 6 scale che compongono la versione finale del MPDT (Depression = 3 item; Anxiety = 3 item; PTSD = 4 item; Anger = 4 item, Justice = 4 item; Functional Coping = 4 item) mostrano un'adeguata unidimensionalità e attendibilità (omega = .69-.84); tutti gli item inclusi saturano in modo adeguato sulle scale di appartenenza (range .421-.777, Tab. 7 e 8), risultando buoni indicatori del costrutto. Oltre al tradizionale $PPP\chi^2$, più indici di fit sono stati testati per verificare l'adeguatezza del modello (BRMSEA, BRSMS, baeyesian GammaHaat). Tutti i valori appaiono in linea con le raccomandazioni proposte da Hu e Bentler (1999), suggerendo che il MPDT rappresenti una misura di rilevazione valida e attendibile della sofferenza psicologica dei malati di MM.

Recentemente, Sherborne et al. (2020) hanno sottolineato la necessità di perlustrare maggiormente le strategie positive attivate dai malati di MM, sottolineando come queste possano rappresentare risorse preziose utili per contrastare i vissuti di impotenza spesso provati dai malati di MM dopo le comunicazioni da parte del personale sanitario. Gli item della scala Coping Funzionale (i11_ *Cerco di trovare sempre qualcosa di positivo nonostante la mia malattia*; i13_ *Mi capita spesso di pensare alle cose belle della vita*; i18_ *Nonostante sia malato mi concedo momenti di piacere*, i21_ *Ho trovato nuovi modi per continuare a fare le cose*) sembrano riflettere un'attitudine positiva, la presenza di ottimismo, sguardo prospettico e comportamenti proattivi, indici di un miglior adattamento da parte del soggetto alla malattia. Nello specifico, essi sembrano riflettere modalità proattive di coping (Schwarzer & Knoll, 2003), che consistono nel recuperare risorse, nello sviluppare skills e nel pianificare strategie per raggiungere obiettivi futuri. Esse consentono quindi di affrontare in modo efficace situazioni future di diverso grado

di certezza/incertezza, che vengono percepite dai soggetti non necessariamente come minacce o problemi, ma come sfide e obiettivi da perseguire. Tale scala, inoltre, appare negativamente correlata con ansia, depressione e vissuti post-traumatici connessi alla diagnosi di MM. Per questo motivo, essa può essere interpretata come un prezioso indicatore di un processo di adattamento psicologico alla malattia, che consente di fronteggiare l'intensità delle emozioni negative correlate alla diagnosi, e si propone di rinominare la scala "*Proactive MM management*".

In linea generale, quindi, la versione finale del MPDT si configura come uno strumento breve e di facile somministrazione, capace di rilevare la sofferenza psicologica dei pazienti con MM. Esso, inoltre, rappresenta il primo reattivo psicologico specificatamente designato per questo tipo di popolazione target, rivestendo importanti ricadute sia in termini di ricerca, sia in termini clinici. Sino ad oggi, infatti, gli studi condotti su questo tipo di popolazione si sono avvalsi di misure di rilevazione che, sebbene validate, non posseggono elevati livelli di specificità, ma sembrano indagare piuttosto in modo generico ipotetici costrutti psicologici correlati alla diagnosi di MM. Il MPDT riveste anche notevoli implicazioni cliniche: in accordo con le più attuali indicazioni terapeutiche italiane, infatti, la presa in carico di questi pazienti dovrebbe seguire un approccio multidisciplinare, che tenga conto anche dei risvolti psicologici della malattia stessa (Novello et al., 2016). In questo senso, il MPDT rappresenta una risorsa preziosa che potrebbe essere utilizzata nei servizi presenti sul territorio (i.e. COR, SPRESAL, ospedali) per la rilevazione dei livelli di distress emotivo dei pazienti affetti da MM, attivando sulla base dei risultati ottenuti possibili percorsi di supporto/psicoterapeutici. Inoltre, un suo ulteriore ambito di applicazione potrebbe risiedere nella valutazione di processo e di esito di tali percorsi, che ad oggi risulta del tutto assente nella letteratura scientifica internazionale.

Sebbene nel suo complesso lo strumento possa essere considerato valido e attendibile, i risultati riportati nello studio di costruzione e validazione (Studio 2) andrebbero considerati come delle evidenze preliminari delle qualità psicometriche del test. Va sottolineato, infatti, che il processo di validazione ha preso in esame solo alcuni aspetti della validità, ponendo maggior enfasi su aspetti teorico-metodologici (i.e. validità di contenuto e di faccia; procedura multi-metodo), necessari per una più precisa costruzione di nuove scale di valutazione (Ziegler, 2014, 2020). Successive ricerche

dovrebbero concentrarsi sulla sperimentazione della versione a 22 item del MPDT, indagandone la validità convergente e la struttura fattoriale latente, in modo da comprendere meglio le relazioni tra i diversi domini, giungere a una versione più parsimoniosa dello strumento e incrementare la robustezza del modello. Un'altra limitazione importante del presente studio è data dall'ampiezza campionaria, che potrebbe aver inciso sugli indici di fit del modello, molto vicini ai valori-soglia generalmente accettati e utilizzati in letteratura. Tuttavia, va sottolineato che sebbene il nostro campione possa essere considerato di dimensioni modeste, il nostro campione, sebbene di ridotte dimensioni, rappresenta una sostanziale percentuale della popolazione italiana (ca 10%). Inoltre, va segnalato che le ricerche empiriche condotte su questo tipo di popolazione sono spesso qualitative e su campioni molto piccoli ($N < 50$), a causa della rarità del MM, delle difficoltà nel processo di reclutamento dovute alla invalidante sintomatologia fisica dello stesso e alla ridotta aspettativa di vita dei malati. Il nostro rappresenta, infatti, uno dei pochi studi condotti su un campione superiore ai 100 soggetti (Nagamatzu, 2018, 2019; Bonafede et al., 2020). Il disegno multicentrico dello studio, inoltre, unito alla rappresentatività del campione rappresentano importanti punti di forza metodologici, suggerendo una certa generalizzabilità dei dati.

Da un punto di vista clinico, va segnalato che il MM non incide solo sul benessere psicologico dei malati, ma compromette notevolmente anche il funzionamento emotivo anche di chi gli sta accanto. Alcuni studi hanno infatti evidenziato come talvolta la sofferenza psicologica dei caregivers sia addirittura superiore a quella dei malati stessi (Granieri 2008, 2013; Granieri et al., 2013; Bonafede et al., 2020). Future ricerche dovrebbero quindi essere indirizzate a predisporre una versione del MPDT anche per i caregiver dei malati di MM.

Concludendo, nonostante queste limitazioni il MPDT si configura come una nuova promettente misura in grado di rilevare il distress psicologico dei malati di MM, utilizzabile in contesti sia di ricerca, sia clinici. Appaiono però necessarie ulteriori indagini future volte ad accertare l'attendibilità test-retest dello strumento e a verificare la sua capacità di discriminare tra soggetti clinici e soggetti sani, così come tra differenti patologie oncologiche.

BIBLIOGRAFIA

1. Arber, A., Spencer, L. (2012). 'It's all bad news': The first 3 months following a diagnosis of malignant pleural mesothelioma. *Psycho-Oncology*, 22(7), 1528-1533. doi:10.1002/pon.3162
2. Asparouhov, T., Muthén, B. (2010). *Bayesian SEM: A more flexible representation of substantive theory. Technical implementation*. Technical appendix. Los Angeles: Muthén & Muthén. <http://www.statmodel.com/download/BSEMV4.pdf>
3. Asparouhov, T., Muthén, B., Morin, A. J. (2015). Bayesian Structural Equation Modeling With Cross-Loadings and Residual Covariances. *Journal of Management*, 41(6), 1561-1577. doi:10.1177/0149206315591075
4. Ball, H., Moore, S., Leary, A. (2016). A systematic literature review comparing the psychological care needs of patients with mesothelioma and advanced lung cancer. *European Journal of Oncology Nursing*, 25, 62-67. doi:10.1016/j.ejon.2016.09.007
5. Barak, Y., Achiron, A., Rotstein, Z., Elizur, A., Noy, S. (1998). Stress associated with asbestosis: The trauma of waiting for death. *Psycho-Oncology*, 7(2), 126-128. doi:10.1002/(sici)1099-1611(199803/04)7:23.0.co;2-a
6. Bentler, P. M. (2007). Covariance Structure Models for Maximal Reliability of Unit-Weighted Composites. *Handbook of Latent Variable and Related Models*, 1-19. doi:10.1016/b978-044452044-9/50004-5
7. Berterö, C., Vanhanen, M., Appelin, G. (2008). Receiving a diagnosis of inoperable lung cancer: Patients' perspectives of how it affects their life situation and quality of life. *Acta Oncologica*, 47(5), 862-869. doi:10.1080/02841860701654333
8. Bonafede, M., Ghelli, M., Corfiati, M., Rosa, V., Guglielmucci, F., Granieri, A., & Marinaccio, A. (2018). The psychological distress and care needs of mesothelioma patients and asbestos-exposed subjects: A systematic review of published studies. *American Journal of Industrial Medicine*, 61(5), 400-412. doi:10.1002/ajim.22831
9. Bonafede, M., Granieri, A., Binazzi, A., Mensi, C., Grosso, F., Santoro, G., Franzoi, I.G., Marinaccio, A., Guglielmucci, F. (2020). Psychological Distress after a Diagnosis of Malignant Mesothelioma in a Group of Patients and Caregivers at the National Priority Contaminated Site of Casale Monferrato. *International Journal of Environmental Research and Public Health*, 17(12), 4353. doi:10.3390/ijerph17124353

10. Borgogno, F. V., Franzoi, I. G., Barbasio, C. P., Guglielmucci, F., Granieri, A. (2015). Massive Trauma in A Community Exposed to Asbestos: Thinking and Dissociation among the Inhabitants of Casale Monferrato. *British Journal of Psychotherapy*, 31(4), 419-432. doi:10.1111/bjp.12170
11. Braun, V., Clarke, V. (2006). Using thematic analysis in psychology. *Qualitative Research in Psychology*, 3(2), 77-101. doi:10.1191/1478088706qp063oa
12. Brien, S. E., Lorenzetti, D. L., Lewis, S., Kennedy, J., Ghali, W. A. (2010). Overview of a formal scoping review on health system report cards. *Implementation Science*, 5(1). doi:10.1186/1748-5908-5-2
13. Bromberg, P. M. (2012). *The Shadow of the Tsunami and the Growth of the Relational Mind*
14. Brown, T. A. (2015). *Methodology in the social sciences. Confirmatory factor analysis for applied research (2nd ed.)*. The Guilford Press
15. Buchholz, W. M. (2017). The Patient's Experience of Malignant Mesothelioma. *Asbestos and Mesothelioma Current Cancer Research*, 381-407. doi:10.1007/978-3-319-53560-9_18
16. Buultjens, J., Kozlowski, D., & Tucker, J. (2015). Dusted but connected: A case study of Australian online community for people affected by asbestos-related disease. *Journal of Economic & Social Policy*, 17(2), 81.
17. Carlson, E. B., Putnam, F. W., Ross, C. A., Torem, M., Coons, P., Dill, D. L., Loewenstein, R. J., & Braun, B. G. (1993). Validity of the Dissociative Experiences Scale in screening for multiple personality disorder: a multicenter study. *The American journal of psychiatry*, 150(7), 1030–1036. doi:10.1176/ajp.150.7.1030
18. Casellas-Grau, A., Ochoa, C., Ruini, C. (2017). Psychological and clinical correlates of posttraumatic growth in cancer: A systematic and critical review. *Psycho-Oncology*, 26(12), 2007-2018. doi:10.1002/pon.4426.
19. Chapple, A., Ziebland, S., Mcpherson, A. (2004). Stigma, shame, and blame experienced by patients with lung cancer: Qualitative study. *Bmj*, 328(7454), 1470. doi:10.1136/bmj.38111.639734.7c
20. Charmaz, K. (2006). Constructing Grounded Theory: A practical guide through qualitative analysis *Nurse researcher*, 13(4), 84. doi.org/10.7748/nr.13.4.84.s4
21. Chiorri, C. (2011). Metodi per valutare la validità di facciata. In *Teoria e tecnica*

- psicometrica. Costruire un test psicologico.*
22. Clayson, H. (2003). Suffering in mesothelioma: Concepts and contexts. *Progress in Palliative Care*, 11(5), 251-255. doi:10.1179/096992603322731143
 23. Clayson, H. (2007). The Experience of Mesothelioma in Northern England. *PQDT - UK & Ireland*.
 24. Clayson, H., Seymour, J., Noble, B. (2005). Mesothelioma from the Patient's Perspective. *Hematology/Oncology Clinics of North America*, 19(6), 1175-1190. doi:10.1016/j.hoc.2005.09.003
 25. Cramer, P. (1998). Coping and Defense Mechanisms: What's the Difference? *Journal of Personality*, 66(6), 919-946. doi:10.1111/1467-6494.00037
 26. CASP (2020). CASP Checklists. Retrieved August 06, 2020, from <https://casp-uk.net/casp-tools-checklists/>
 27. Cronbach, L. J. (1951). Coefficient alpha and the internal structure of tests. *Psychometrika*, 16(3), 297-334. doi:10.1007/bf02310555
 28. Cowan, G. (1998). *Statistical Data Analysis*. Oxford university press.
 29. Cullberg J. (1975). *Crisis and development*. Bonniers, Stockholm
 30. Curran, P. J., Bollen, K. A., Chen, F., Paxton, P., Kirby, J. B. (2003). Finite Sampling Properties of the Point Estimates and Confidence Intervals of the RMSEA. *Sociological Methods & Research*, 32(2), 208-252. doi:10.1177/0049124103256130
 31. De Beer, L. T., Bianchi, R. (2019). Confirmatory Factor Analysis of the Maslach Burnout Inventory. *European Journal of Psychological Assessment*, 35(2), 217-224. doi:10.1027/1015-5759/a000392
 32. Depaoli, S., Clifton, J. P. (2015). A Bayesian Approach to Multilevel Structural Equation Modeling With Continuous and Dichotomous Outcomes. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 22(3), 327-351. doi:10.1080/10705511.2014.937849
 33. Devine, D., Parker, P. A., Fouladi, R. T., Cohen, L. (2003). The association between social support, intrusive thoughts, avoidance, and adjustment following an experimental cancer treatment. *Psycho-Oncology*, 12(5), 453-462. doi:10.1002/pon.656

34. Dooley, J. J., Wilson, J. P., Anderson, V. A. (2010). Stress and depression of facing death: Investigation of psychological symptoms in patients with mesothelioma. *Australian Journal of Psychology*, 62(3), 160-168. doi:10.1080/00049530903510757
35. Eid, M., & Diener, E. (Eds.). (2006). *Handbook of multimethod measurement in psychology*. American Psychological Association. doi:10.1037/11383-000
36. Fan, X., Sivo, S. A. (2007). Sensitivity of Fit Indices to Model Misspecification and Model Types. *Multivariate Behavioral Research*, 42(3), 509-529. doi:10.1080/00273170701382864
37. Farma, T., & Cortinovis, I. (2000). Misurare i meccanismi di difesa attraverso il "Defense Style Questionnaire" a 40 item. Attendibilità dello strumento e suo utilizzo nel contesto italiano. *Ric. Psicol*, 24, 127-144.
38. Fielding, N. G., & Fielding, J. L. (1986). *Qualitative Research Methods: Linking data*. Thousand Oaks, CA: SAGE Publications, Inc. doi: 10.4135/9781412984775.
39. Flick, U. (1992). Triangulation revisited: Strategy of validation or alternative? *Journal for the Theory of Social Behaviour*, 22(2), 175–197. doi:10.1111/j.1468-5914.1992.tb00215.x.
40. Foa, E. B., Kozak, M. J. (1986). Emotional processing of fear: Exposure to corrective information. *Psychological Bulletin*, 99(1), 20-35. doi:10.1037/0033-2909.99.1.20
41. Franzoi, I. G., Guglielmucci, F., Borgogno, F., Granieri, A. (2015). Il caso Giulia. *Psicoterapia e Scienze Umane*. 4/2015, pp. 656-664. doi:10.3280/PU2015-004008
42. Furuya, S., Chimed-Ochir, O., Takahashi, K., David, A., Takala, J. (2018). Global Asbestos Disaster. *International Journal of Environmental Research and Public Health*, 15(5), 1000. doi:10.3390/ijerph15051000
43. Garnier-Villarreal, M., Jorgensen, T. D. (2020). Adapting fit indices for Bayesian structural equation modeling: Comparison to maximum likelihood. *Psychological Methods*, 25(1), 46-70. doi:10.1037/met0000224
44. Garrard, L., Price, L. R., Bott, M. J., Gajewski, B. J. (2015). A novel method for expediting the development of patient-reported outcome measures and an evaluation of its performance via simulation. *BMC Medical Research Methodology*, 15(1). doi:10.1186/s12874-015-0071-5
45. Gawande, A. (2015). *Being mortal: Medicine and what matters in the end*. New York: Picador.

46. Girgis, S., Lambert, S., Waller, A., & Girgis, A. (2019). "It sort of hit me like a baseball bat between the eyes": a qualitative study of the psychosocial experiences of mesothelioma patients and carers. *Supportive Care in Cancer*, 27(2), 631-638. doi:10.1007/s00520-018-4357-0
47. Glaser, B., & Strauss, A. (1967). The discovery of grounded theory. 1967. *Weidenfield & Nicolson, London*.
48. Goldie, L., Desmarais, J. (2006). *Psychotherapy and the treatment of cancer patients: Bearing cancer in mind*. London: Routledge.
49. Granieri, A. (2008). *Amianto, risorsa e dramma di Casale: risvolti psicologici nelle persone affette da mesotelioma e nei loro familiari*. Genova: Fratelli Frilli.
50. Granieri A. (2015). Community exposure to asbestos in Casale Monferrato: from research on psychological impact to a community needs-centered healthcare organization. *Annali dell'Istituto superiore di sanità*, 51(4), 336–341. doi:10.4415/ANN_15_04_14
51. Granieri, A. (2016). La comunità contaminata di Casale Monferrato: aspetti corruttivi della governance e sopravvivenza psichica. In L. Ambrosiano & M. Sarno (Eds.). *Corruttori e corrotti. Ipotesi psicoanalitiche*. (pp. 107 - 126). Milano: Mimesis
52. Granieri, A. (2017). The Drive For Self-Assertion And The Reality Principle In A Patient With Malignant Pleural Mesothelioma: The History of Giulia*. *The American Journal of Psychoanalysis*, 77(3), 285-294. doi:10.1057/s11231-017-9099-0
53. Granieri, A., & Borgogno, F. V. (2014). Pensabilità e dissociazione in una popolazione colpita da trauma massivo: una ricerca intervento di matrice psicoanalitica. *Il Vaso di Pandora. Dialoghi in psichiatria e scienze umane*. 2014;22(2):83-102
54. Granieri, A., Borgogno, F.V., Franzoi, I.G., Gonella, M., Guglielmucci, F. (2018). Development of a Brief Psychoanalytic Group Therapy (BPG) and its application in an asbestos National Priority Contaminated Site. *Annali dell'Istituto Superiore di Sanità*, 54(2): 161-167. doi:10.4415/ANN_18_02_12
55. Granieri, A., Tamburello, S., Tamburello, A., Casale, S., Cont, C., Guglielmucci, F., & Innamorati, M. (2013). Quality of life and personality traits in patients with malignant pleural mesothelioma and their first-degree caregivers. *Neuropsychiatric disease and treatment*, 9, 1193. doi:10.2147/ndt.s48965

56. Guglielmucci, F. (2016). Vita, Morte e Lotta nel Sito Contaminato di Casale Monferrato. *Alcune Riflessioni tra Clinica e Ricerca. [Life, Death and Fight in the Contaminated Site of Casale Monferrato. Some Considerations between Clinic and Research].* Genova: Fratelli Frilli
57. Guglielmucci, F., Franzoi, I. G., Bonafede, M., Borgogno, F. V., Grosso, F., & Granieri, A. (2018a). "The less I think about it, the better I feel": a thematic analysis of the subjective experience of malignant mesothelioma patients and their caregivers. *Frontiers in psychology*, 9, 205. doi:10.3389/fpsyg.2018.00205
58. Guglielmucci, F., Bonafede, M., Franzoi, I. G., & Granieri, A. (2018b). Research and malignant mesothelioma: lines of action for clinical psychology. *Annali dell'Istituto superiore di sanità*, 54(2), 149-159. doi:10.4415/ANN_18_02_11
59. Guglielmucci, F., Franzoi, I. G., Zuffranieri, M., Granieri, A. (2015). Living in Contaminated Sites: Which Cost for Psychic Health? *Mediterranean Journal of Social Sciences*. doi:10.5901/mjss.2015.v6n4s3p207
60. Guglielmucci, F., Franzoi, I. G., Barbasio, C. P., Borgogno, F. V., Granieri, A. (2014). Helping traumatized people survive: A psychoanalytic intervention in a contaminated site. *Frontiers in Psychology*, 5. doi:10.3389/fpsyg.2014.01419
61. Guji, M. (2005). *The Experience of Surviving Terminal Cancer: A Phenomenological Study*. California Institute of Integral Studies
62. Hawley, R., & Monk, A. (2004). Malignant mesothelioma: current practice and research directions. *Collegian*, 11(2), 22-26. doi.org/10.1016/S1322-7696(08)60451-5
63. Henson, K. E., Brock, R., Charnock, J., Wickramasinghe, B., Will, O., Pitman, A. (2019). Risk of Suicide After Cancer Diagnosis in England. *JAMA Psychiatry*, 76(1), 51. doi:10.1001/jamapsychiatry.2018.3181
64. Holland, J. C., Breitbart, W. S., Butow, P. N., Jacobsen, P. B., Loscalzo, M. J., & McCorkle, R. (2015). Psycho-oncology., (3rd ed). In *Psycho-oncology*.
65. Hu, L., Bentler, P. M. (1998). Fit indices in covariance structure modeling: Sensitivity to underparameterized model misspecification. *Psychological Methods*, 3(4), 424-453. doi:10.1037/1082-989x.3.4.424

66. Hu, L., Bentler, P. M. (1999). Cutoff criteria for fit indexes in covariance structure analysis: Conventional criteria versus new alternatives. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 6(1), 1-55. doi:10.1080/10705519909540118
67. Huang, Y., Tan, N. T., Liu, J. (2016). Support, Sense Of Community, And Psychological Status In The Survivors Of The Yaan Earthquake. *Journal of Community Psychology*, 44(7), 919-936. doi:10.1002/jcop.21818
68. Hughes, N., Arber, A. (2008). The lived experience of patients with pleural mesothelioma. *International Journal of Palliative Nursing*, 14(2), 66-71. doi:10.12968/ijpn.2008.14.2.28597
69. International Agency for Research on Cancer. (n.d.). Retrieved from <https://www.iarc.fr/>
70. Kao, S. C., Vardy, J., Harvie, R., Chatfield, M., Zandwijk, N. V., Clarke, S., Pavlakis, N. (2012). Health-related quality of life and inflammatory markers in malignant pleural mesothelioma. *Supportive Care in Cancer*, 21(3), 697-705. doi:10.1007/s00520-012-1569-6
71. Kasai, Y., Hino, O. (2018). Psychological Transition Characteristics of Patients Diagnosed with Asbestos-Related Mesothelioma. *Juntendo Medical Journal*, 64(2), 114-121. doi:10.14789/jmj.2018.64.jmj17-0a09
72. Kline, R. B. (2015). *Principles and practice of structural equation modeling (4rd edition)*. Guilford publications
73. Kozlowski, D., Provost, S. C., Tucker, J., & van der Zwan, R. (2014). Dusted community: piloting a virtual peer-to-peer support community for people with an asbestos-related diagnosis and their families. *Journal of psychosocial oncology*, 32(4), 463–475. doi:10.1080/07347332.2014.917142
74. Kruschke, J. K. (2014). *Doing Bayesian data analysis: A tutorial with R, JAGS, and Stan (2nd edition)*. Academic Press
75. Kruschke, J. K. (2018). Rejecting or accepting parameter values in Bayesian estimation. *Advances in Methods and Practices in Psychological Science*, 1(2), 270–280. doi.org/10.1177/2515245918771304
76. Kutek, S. M., Turnbull, D., & Fairweather-Schmidt, A. K. (2011). Rural men's subjective well-being and the role of social support and sense of community: evidence

- for the potential benefit of enhancing informal networks. *The Australian journal of rural health*, 19(1), 20–26. doi:10.1111/j.1440-1584.2010.01172.x
77. Lebovits, A. H., Chahinian, A. P., Holland, J. C. (1983). Exposure to asbestos: Psychological responses of mesothelioma patients. *American Journal of Industrial Medicine*, 4(3), 459-466. doi:10.1002/ajim.4700040306
78. Lebovits, A. H., Chahinian, A. P., Gorzynski, J. G., & Holland, J. C. (1981). Psychological aspects of asbestos-related mesothelioma and knowledge of high risk for cancer. *Cancer detection and prevention*, 4(1-4), 181-184
79. Lee, S. F., O'Connor, M. M., Chapman, Y., Hamilton, V., & Francis, K. (2009). A very public death: dying of mesothelioma and asbestos-related lung cancer (M/ARLC) in the Latrobe Valley, Victoria, Australia. *Rural and remote health*, 9(3), 1183
80. Levy, R. (2011). Bayesian Data-Model Fit Assessment for Structural Equation Modeling. *Structural Equation Modeling: A Multidisciplinary Journal*, 18(4), 663-685. doi:10.1080/10705511.2011.607723
81. Linee Guida AIOM 2018 MESOTELIOMA PLEURICO. <https://www.aiom.it/linee-guida-aiom-2018-mesotelioma-pleurico/>
82. Maat, A. P., Cornelissen, R., Bogers, A. J., Takkenberg, J. J. (2015). Is the patient with mesothelioma without hope? *Future Oncology*, 11(24s), 11-14. doi:10.2217/fon.15.184
83. MacCallum, R. C., Widaman, K. F., Zhang, S., & Hong, S. (1999). Sample size in factor analysis. *Psychological methods*, 4(1), 84. doi:10.1037/1082-989X.4.1.84
84. Marinaccio A, Scarselli A, Massari S et al. (2018). Il Registro Nazionale dei Mesoteliomi (ReNaM) – VI Rapporto. *INAIL. Milano: Tipografia INAIL*
85. McDonald, R. (1999). *Test Theory*. New York: Psychology Press. doi:10.4324/9781410601087
86. Mcneish, D. (2018). Thanks coefficient alpha, we'll take it from here. *Psychological Methods*, 23(3), 412-433. doi:10.1037/met0000144
87. Marsh, H. W., Hau, K.-T., & Wen, Z. (2004). In Search of Golden Rules: Comment on Hypothesis-Testing Approaches to Setting Cutoff Values for Fit Indexes and Dangers in Overgeneralizing Hu and Bentler's (1999) Findings. *Structural Equation Modeling*, 11(3), 320–341. doi:10.1207/s15328007sem1103_2

88. Mercadante, S., Degiovanni, D., Casuccio, A. (2016). Symptom burden in mesothelioma patients admitted to home palliative care. *Current Medical Research and Opinion*, 32(12), 1985-1988. doi:10.1080/03007995.2016.1226165
89. Merkle, E. C., Rosseel, Y. (2018). Blavaan: Bayesian Structural Equation Models via Parameter Expansion. *Journal of Statistical Software*, 85(4). doi:10.18637/jss.v085.i04
90. Ministero della Salute. (2012). Stato dell'arte e prospettive in materia di contrasto alle patologie asbesto-correlate. *Quaderni del Ministero della salute*, 15
91. Moher, D., Liberati, A., Tetzlaff, J., Altman, D. G. (2009). Reprint—Preferred Reporting Items for Systematic Reviews and Meta-Analyses: The PRISMA Statement. *Physical Therapy*, 89(9), 873-880. doi:10.1093/ptj/89.9.873
92. Mollberg, N. M., Vigneswaran, Y., Kindler, H. L., Warnes, C., Salgia, R., Husain, A. N., & Vigneswaran, W. T. (2012). Quality of life after radical pleurectomy decortication for malignant pleural mesothelioma. *The Annals of thoracic surgery*, 94(4), 1086–1092. doi:10.1016/j.athoracsur.2012.05.102
93. Moore, S., Darlison, L., & Tod, A. M. (2010). Living with mesothelioma. A literature review. *European journal of cancer care*, 19(4), 458–468. doi:10.1111/j.1365-2354.2009.01162.x
94. Moore, S., Teehan, C., Cornwall, A., Ball, K., Thomas, J. (2008). 'Hands of Time': The experience of establishing a support group for people affected by mesothelioma. *European Journal of Cancer Care*. doi:10.1111/j.1365-2354.2007.00912.x
95. Muers, M. F., Stephens, R. J., Fisher, P., Darlison, L., Higgs, C. M., Lowry, E., Nicholson, A. G., O'Brien, M., Peake, M., Rudd, R., Snee, M., Steele, J., Girling, D. J., Nankivell, M., Pugh, C., Parmar, M. K. B. (2008). Active symptom control with or without chemotherapy in the treatment of patients with malignant pleural mesothelioma (MS01): a multicentre randomised trial. *The Lancet*, 371(9625), 1685-1694. doi: 10.1016/s0140-6736(08)60727-8
96. Muthén, B., Asparouhov, T. (2012). Bayesian structural equation modeling: A more flexible representation of substantive theory. *Psychological Methods*, 17(3), 313-335. doi:10.1037/a0026802
97. Nagamatsu Y, Horiuchi S, Natori Y. (2012). The stages and difficulties of patients with malignant pleural mesothelioma. *J Human Care Stud.*;12:69–81

98. Nagamatsu, Y., Nakayama, Y., Clayson, H., Natori, Y., Ohata, M., Matsuura-Moriguchi, S., Porter, S. E. (2014). Caring for Patients with Malignant Pleural Mesothelioma in Japan: Evaluation of a Palliative Care Educational Program. *Asian Pacific Journal of Cancer Prevention*, 15(21), 9165-9170. doi:10.7314/apjcp.2014.15.21.9165
99. Nagamatsu, Y., Oze, I., Aoe, K., Hotta, K., Kato, K., Nakagawa, J., Fujimoto, N. (2018). Quality of life of survivors of malignant pleural mesothelioma in Japan: A cross sectional study. *BMC Cancer*, 18(1). doi:10.1186/s12885-018-4293-x
100. Nagamatsu, Y., Oze, I., Aoe, K., Hotta, K., Kato, K., Nakagawa, J., Fujimoto, N. (2019). Physician requests by patients with malignant pleural mesothelioma in Japan. *BMC Cancer*, 19(1). doi:10.1186/s12885-019-5591-7
101. NCI. January 1980. *Malignant Mesothelioma—Patient Version*. Archived from the original on 6 April 2016. Retrieved 3 April 2016
102. Novello, S., Pinto, C., Torri, V., Porcu, L., Di Maio, M., Tiseo, M., Papotti, M. (2016). The Third Italian Consensus Conference for Malignant Pleural Mesothelioma: State of the art and recommendations. *Critical Reviews in Oncology/Hematology*, 104, 9-20. doi:10.1016/j.critrevonc.2016.05.004
103. Nowak, A. K., Stockler, M. R., Byrne, M. J. (2004). Assessing Quality of Life During Chemotherapy for Pleural Mesothelioma: Feasibility, Validity, and Results of Using the European Organization for Research and Treatment of Cancer Core Quality of Life Questionnaire and Lung Cancer Module. *Journal of Clinical Oncology*, 22(15), 3172-3180. doi:10.1200/jco.2004.09.147
104. O'brien, M., Watkins, D., Ryan, C., Priest, K., Corbishley, C., Norton, A., . . . Sayer, R. (2006). A randomised trial in malignant mesothelioma (M) of early (E) versus delayed (D) chemotherapy in symptomatically stable patients: The MED trial. *Annals of Oncology*, 17(2), 270-275. doi:10.1093/annonc/mdj073
105. Pineles, S. L., Mostoufi, S. M., Ready, C. B., Street, A. E., Griffin, M. G., Resick, P. A. (2011). Trauma reactivity, avoidant coping, and PTSD symptoms: A moderating relationship? *Journal of Abnormal Psychology*, 120(1), 240-246. doi:10.1037/a0022123

106. Preacher, K. J., & MacCallum, R. C. (2002). Exploratory factor analysis in behavior genetics research: factor recovery with small sample sizes. *Behavior genetics*, 32(2), 153–161. doi.org/10.1023/a:1015210025234
107. Rammstedt, B., Kemper, C. (2011). Measurement equivalence of the Big Five: Shedding further light on potential causes of the educational bias. *Journal of Research in Personality*, 45(1), 121-125. doi:10.1016/j.jrp.2010.11.006
108. Raykov, T. (2002). Analytic Estimation of Standard Error and Confidence Interval for Scale Reliability. *Multivariate Behavioral Research*, 37(1), 89-103. doi:10.1207/s15327906mbr3701_04
109. Revelle, W. (1979). Hierarchical Cluster Analysis And The Internal Structure Of Tests. *Multivariate Behavioral Research*, 14(1), 57-74. doi:10.1207/s15327906mbr1401_4
110. Ribi, K., Bernhard, J., Schuller, J. C., Weder, W., Bodis, S., Jörger, M., Betticher, D., Schmid, R. A., Stupp, R., Ris, H. B., Stahel, R. A. (2008). Individual versus standard quality of life assessment in a phase II clinical trial in mesothelioma patients: Feasibility and responsiveness to clinical changes. *Lung Cancer*, 61(3), 398-404. doi:10.1016/j.lungcan.2008.01.013
111. Robinson BWS, Chahinian AP, (eds) (2002). *Mesothelioma*. Martin Dunitz: London, 2002, pp 366.
112. Rong, Y., Luo, X., Zhang, Z., Cui, X., Liu, Y., Chen, W. (2015). Occupational exposure to asbestos and cardiovascular related diseases: A meta-analysis. *Preventive Medicine Reports*, 2, 920-926. doi:10.1016/j.pmedr.2015.10.005
113. Rutherford, M. J., Mcdermott, P. A., Cacciola, J. S., Alterman, A. I., Mulvaney, F. (1998). A Psychometric Evaluation of the Defense Style Questionnaire in Methadone Patients. *Journal of Personality Disorders*, 12(2), 119-125. doi:10.1521/pedi.1998.12.2.119
114. Saita, E., Molgora, S., & Vacchini, G. (2011). Il fenomeno del drop-out nella ricerca: riflessioni e appunti di metodo. *Ricerche di Psicologia*. doi: 10.3280/RIP2011-004001
115. Salahudeen, A. K., Ali, N., George, M., Lahoti, A., & Palla, S. (2014). Tolvaptan in hospitalized cancer patients with hyponatremia: a double-blind, randomized,

- placebo-controlled clinical trial on efficacy and safety. *Cancer*, 120(5), 744–751. doi:10.1002/cncr.28468
116. Schwarzer, R., & Knoll, N. (2003). Positive coping: Mastering demands and searching for meaning. In S. J. Lopez & C. R. Snyder (Eds.), *Positive psychological assessment: A handbook of models and measures* (p. 393–409). American Psychological Association. doi:10.1037/10612-025
 117. Sherborne, V., Seymour, J., Taylor, B., Tod, A. (2020). What are the psychological effects of mesothelioma on patients and their carers? A scoping review. *Psycho-Oncology*, 29(10), 1464-1473. doi:10.1002/pon.5454
 118. Tabachnick, B. G., & Fidell, L. S. (2007). *Using multivariate statistics (5th ed.)*. Boston, MA: Allyn & Bacon
 119. Tartaglia, S. (2013). Different Predictors of Quality of Life in Urban Environment. *Social Indicators Research*, 113(3), 1045-1053. doi:10.1007/s11205-012-0126-5
 120. Taylor, B. H., Warnock, C., Tod, A. (2019). Communication of a mesothelioma diagnosis: Developing recommendations to improve the patient experience. *BMJ Open Respiratory Research*, 6(1). doi:10.1136/bmjresp-2019-000413
 121. Ugalde, A., Aranda, S., Krishnasamy, M., Ball, D., & Schofield, P. (2012). Unmet needs and distress in people with inoperable lung cancer at the commencement of treatment. *Supportive care in cancer: official journal of the Multinational Association of Supportive Care in Cancer*, 20(2), 419–423. doi.org/10.1007/s00520-011-1296-4
 122. Van Ijzendoorn, M. H., Schuengel, C., & Bakermans-Kranenburg, M. J. (1999). Disorganized attachment in early childhood: Meta-analysis of precursors, concomitants, and sequelae. *Development and psychopathology*, 11(2), 225-250. doi:10.1017/s0954579499002035
 123. Van Zandwijk, N., Clarke, C., Henderson, D., Musk, A. W., Fong, K., Nowak, A., & Currow, D. (2013). Guidelines for the diagnosis and treatment of malignant pleural mesothelioma. *Journal of thoracic disease*, 5(6), E254. doi:10.3978/j.issn.2072-1439.2013.11.28
 124. Vogt, D. S., King, D. W., & King, L. A. (2004). Focus groups in psychological assessment: enhancing content validity by consulting members of the target population. *Psychological assessment*, 16(3), 231. doi:10.1037/1040-3590.16.3.231

125. Walker, S. L., Crist, J. D., Shea, K., Holland, S., & Cacchione, P. Z. (2019). The Lived Experience of Persons With Malignant Pleural Mesothelioma in the United States. *Cancer Nursing*. doi:10.1097/ncc.0000000000000770
126. Warby, A., Dhillon, H. M., Kao, S., & Vardy, J. L. (2019). Managing malignant pleural mesothelioma: experience and perceptions of health care professionals caring for people with mesothelioma. *Supportive Care in Cancer*, 1-11. doi: 10.1007/s00520-019-4648-0
127. Weinert, C., Hill, W. G., Winters, C. A., Kuntz, S. W., Rowse, K., Hernandez, T., Cudney, S. (2011). Psychosocial health status of persons seeking treatment for exposure to libby amphibole asbestos. *ISRN nursing*, 2011. doi: 10.5402/2011/735936
128. West, S. G., Taylor, A. B., & Wu, W. (2012). Model fit and model selection in structural equation modeling. In R. H. Hoyle (Ed.), *Handbook of structural equation modeling* (p. 209–231). *The Guilford Press*
129. Wood, H., Connors, S., Dogan, S., & Peel, T. (2013). Individual experiences and impacts of a physiotherapist-led, non-pharmacological breathlessness programme for patients with intrathoracic malignancy: A qualitative study. *Palliative Medicine*, 27(6), 499–507. doi.org/10.1177/0269216312464093
130. Ziegler, M. (2014). Comments on Item Selection Procedures. *European Journal of Psychological Assessment*, 30(1), 1-2. doi:10.1027/1015-5759/a000196
131. Ziegler, M. (2014). Stop and state your intentions!: Let's not forget the ABC of test construction [Editorial]. *European Journal of Psychological Assessment*, 30(4), 239–242. doi:10.1027/1015-5759/a000228
132. Ziegler, M. (2020). Psychological test adaptation and development – How papers are structured and why. Advance online publication. *Psychological Test Adaptation and Development*. doi:10.1027/2698-1866/a000002
133. Zinbarg, R. E., Revelle, W., & Yovel, I. (2007). Estimating ω_h for Structures Containing Two Group Factors: Perils and Prospects. *Applied Psychological Measurement*, 31(2), 135–157. doi:10.1177/0146621606291558
134. Zinbarg, R. E., Yovel, I., Revelle, W., & McDonald, R. P. (2006). Estimating Generalizability to a Latent Variable Common to All of a Scale's Indicators: A

Comparison of Estimators for ω_h . *Applied Psychological Measurement*, 30(2), 121–144

Ringraziamenti

Giunta alla conclusione di questo percorso, desidero prendermi un po' di spazio per ringraziare le persone che mi hanno arricchito negli anni del Dottorato. Questo lavoro di tesi è stato particolarmente impegnativo per me, costringendomi a mettermi personalmente in gioco e a cercare soluzioni statistiche inedite e non di facile gestione.

Senza il supporto del mio tutor, la Professoressa Granieri, questo elaborato probabilmente non sarebbe esistito, non solo perché è stata capace negli anni di consentire alla psicologia clinica far breccia nell'algida roccaforte dell'epidemiologia, ma soprattutto perché mi ha permesso fare affidamento su di lei nei momenti di sconforto del percorso di Dottorato, condividendo con me le difficoltà incontrate e offrendo supporto e possibili soluzioni.

Desidero ringraziare i colleghi dell'INAIL – Alessandro Marinaccio, Michela Bonafede e Alessandra Binazzi – con cui negli anni è nato uno scambio proficuo e un rapporto di reciproca stima che ha dato avvio a ulteriori ricerche che esulano da questo percorso.

Sono grata anche al Prof. Michele Roccato e alla Prof.ssa Rosalba Rosata (UNITO) che hanno contribuito alla revisione critica degli item, così come a Marcello Passarelli (CNR) e Danila Azzolina (UPO) e al Prof. Adriano Schimmenti (KORE) per il supporto tecnico con R e con i modelli bayesiani, un linguaggio molto distante dal mio, con cui mi sono spesso “scontrata”, ma che ho imparato ad amare.

Un ringraziamento sentito va a tutti gli sperimentatori– in particolare a Carol Brentisci del COR Piemonte, Carolina Mensi responsabile del COR Lombardia e Federica Grosso, responsabile della S.S.D. Mesotelioma – e ai malati di MM che generosamente hanno preso parte allo studio.

Vorrei inoltre esprimere la mia immensa gratitudine alle amiche e colleghe Natalia Garcia Berra, Elena Garritano e Bianca Barberis che nel corso di questi 4 anni non hanno mai smesso di incoraggiarmi durante i fisiologici cali di motivazione che ogni dottorando incontra nel suo percorso formativo.

Infine, desidero ringraziare Marcus Sandri, per le lunghe chiacchierate notturne sulle stime dei parametri, i SEM, l'approccio bayesiano e per l'aiuto con R, ma anche e soprattutto per essermi stato accanto nella scrittura della tesi, tollerando i miei modi bruschi – spesso dettati dalla frustrazione e difficoltà provate nell'utilizzo del linguaggio

di programmazione e per avermi “distratto” e aver allentato la tensione facendomi ridere e tornare il buon umore quando ne avevo più bisogno.

APPENDICE

Item iniziali del MPDT (N=41) e relativi costrutti

Item	Retained	Scale
01 Mi sento privo di speranza.	YES	
30 Ho paura del futuro.	YES	Depressione/Depression
41 Le cose che prima mi davano piacere adesso sono senza senso per me.	YES	
02 Ho sentito spesso una forte agitazione interna	YES	
27 La vita quotidiana mi sembra troppo difficile per poterla affrontare	YES	Ansia/Anxiety
31 Mi sento angosciato rispetto all'idea della morte	YES	

03	Ho spesso incubi o brutti sogni	YES	
04	Da quando sono malato ho spesso attacchi di rabbia, anche per cose non importanti	YES	
23	Il solo ricordo della comunicazione della diagnosi mi causa disturbi fisici importanti (sudorazione, tachicardia, nausea, diarrea, etc...)	YES	PTSD
32	Mi torna in mente il momento in cui mi hanno detto che sono malato	YES	
05	Penso che l'azienda/le istituzioni avrebbero dovuto tutelare maggiormente i lavoratori/cittadini	YES	
19	Se mi avessero informato sui rischi forse non mi sarei ammalato	YES	
28	Sono arrabbiato perché mi sono ammalato a causa del mio lavoro/a causa del luogo in cui vivo	YES	Rabbia/Anger
33	Mi fa arrabbiare che nessuno mi abbia informato dei rischi di salute che correvo	YES	
06	Mi vergogno per aver esposto i miei cari a un rischio di salute	NO	
20	Mi vergogno per essermi ammalato	NO	Vergogna/Shame
34	Essermi ammalato nel luogo in cui lavoravo/vivevo mi crea imbarazzo	NO	

07	Nonostante mi sia ammalato sento ancora un forte legame con l'azienda/con il territorio	NO	Senso di appartenenza/Belonginess
35	Nel complesso penso che la mia azienda/le istituzioni non mi abbiano poi trattato così male	NO	
08	Se mi sono ammalato è anche una mia responsabilità	NO	
17	Mi sento in colpa perché ho esposto i miei cari al rischio di ammalarsi	NO	Senso di colpa/Guilt
36	Mi rimprovero di non essere andato via dal luogo di lavoro/dove vivo	NO	
09	Ho diritto a essere risarcito per la mia malattia	YES	
15	È preciso dovere dell'azienda/delle istituzioni provvedere al sostentamento della mia famiglia ora che non posso più lavorare	YES	Bisogno di giustizia/Justice
24	Sento un gran bisogno di giustizia per quello che mi è successo	YES	
37	Chi ha causato questa situazione deve essere punito	YES	
10	Spesso evito di pensare di essere malato	YES	
25	Evito di parlare della mia malattia e delle emozioni che mi suscita	NO	Coping disfunzionale/Dysfunctional Coping
38	Cerco di fare più cose possibili durante la giornata per non pensare alla malattia	NO	

11	Cerco di trovare sempre qualcosa di positivo nonostante la mia malattia	YES	
13	Mi capita spesso di pensare alle cose belle della vita	YES	
18	Nonostante sia malato mi concedo momenti di piacere	YES	
21	Ho trovato nuovi modi per continuare a fare le cose	YES	Coping funzionale/Functional Coping
26	Parlo con gli operatori sanitari per comprendere meglio la mia situazione medica	NO	
29	Cerco sostegno dalle persone che mi stanno vicino	NO	
39	Affronto quello che viene, passo dopo passo	NO	
12	Mi sento/mi sono sentito una cavia	NO	
14	A volte gli effetti collaterali delle terapie sono peggiori della malattia stessa	NO	Esperienze soggettive rispetto ai trattamenti/Subjective Experience of Treatments
16	Non mi fido di come mi stanno curando	NO	
22	Vorrei avere maggiori informazioni sulle cure disponibili incluse quelle sperimentali	NO	
40	Davanti ai diversi trattamenti di cura provo un senso di confusione e non so cosa fare	NO	

MESOTHELIOMA PSYCHOLOGICAL DISTRESS TOOL (MPDT)

Gentile paziente,

Siamo interessati a conoscere la sua personale esperienza rispetto alla sua malattia. Le chiediamo di indicare il suo grado di accordo/disaccordo con le affermazioni sotto riportate segnando la risposta che meglio si applica a lei. La preghiamo di ricordare che non esistono risposte “giuste” o “sbagliate”. Le informazioni che ci vorrà fornire saranno trattate in modo confidenziale e ci aiuteranno a comprendere meglio l’impatto che la malattia ha su di lei.

	1. Completamente in disaccordo	2. In disaccordo	3. D'accordo	4. Completamente d'accordo
01 Mi sento privo di speranza.				
02 Ho sentito spesso una forte agitazione interna				
03 Ho spesso incubi o brutti sogni				
04 Da quando sono malato ho spesso attacchi di rabbia, anche per cose non importanti				
05 Penso che l'azienda/le istituzioni avrebbero dovuto tutelare maggiormente i lavoratori/cittadini				

09 Ho diritto a essere risarcito per la mia malattia

10 Spesso evito di pensare di essere malato

11 Cerco di trovare sempre qualcosa di positivo nonostante la mia malattia

13 Mi capita spesso di pensare alle cose belle della vita

15 È preciso dovere dell'azienda/delle istituzioni provvedere al sostentamento della mia famiglia ora che non posso più lavorare

18 Nonostante sia malato mi concedo momenti di piacere

19 Se mi avessero informato sui rischi forse non mi sarei ammalato

21 Ho trovato nuovi modi per continuare a fare le cose

23 Il solo ricordo della comunicazione della diagnosi mi causa disturbi fisici importanti (sudorazione, tachicardia, nausea, diarrea, etc.)

24 Sento un gran bisogno di giustizia per quello che mi è successo

-
- 27 La vita quotidiana mi sembra troppo
difficile per poterla affrontare
- 28 Sono arrabbiato perché mi sono
ammalato a causa del mio lavoro/a causa
del luogo in cui vivo
- 30 Ho paura del futuro.
- 31 Mi sento angosciato rispetto all'idea
della morte
- 32 Mi torna in mente il momento in cui
mi hanno detto che sono malato
- 37 Chi ha causato questa situazione deve
essere punito

Appendice Table 2. Mesothelioma Psychological Distress Tool (MMPT)

Scheda di raccolta informazioni valutazione disagio psicologico:

PAZIENTI

ID ufficiale Registro: _____

Genere: _____

Età: _____

Stato civile: _____

Scolarità: _____

Tipo di diagnosi : istologica ___ citologica ___ radiologica ___

Data diagnosi: _____

Sede anatomica: _____

Tipo di esposizione: _____

Luogo dell'intervista: _____