



IL PROGETTO NINFEA E LE NUOVE FORME DI COINVOLGIMENTO DEI CITTADINI NELLA RICERCA EPIDEMIOLOGICA

THE NINFEA PROJECT AND THE EMERGING FORMS OF ENGAGEMENT OF CITIZENS IN EPIDEMIOLOGICAL RESEARCH

Lorenzo Richiardi,¹ Costanza Pizzi,¹ Franca Rusconi,²
Franco Merletti¹

¹ Epidemiologia dei tumori, Dipartimento di scienze mediche,
Università di Torino e CPO Piemonte, Torino

² Unità di epidemiologia, Azienda ospedaliero-universitaria
"Meyer", Firenze

Corrispondenza
Lorenzo Richiardi
lorenzo.richiardi@unito.it

RIASSUNTO

Negli ultimi anni è emersa una nuova forma di partecipazione dei cittadini alla ricerca e alla produzione di conoscenza. Questo fenomeno ha cominciato a interessare anche l'ambito dell'epidemiologia, come illustrato nella nuova sezione «EpiChange» della rivista *Epidemiologia & Prevenzione*. La conduzione di studi epidemiologici attraverso l'instaurarsi di rapporti innovativi con i cittadini e la realizzazione di nuove forme di produzione di conoscenza – dall'idea di produzione collaborativa fino a forme di produzione tra pari (*peer-production*) – è ancora agli albori ed è quindi necessario esplorare gli aspetti metodologici e le implicazioni di questo potenziale connubio.

Nel 2005 abbiamo cominciato a creare in Italia una coorte di nuovi nati, il progetto NINFEA, che utilizza Internet per coinvolgere nel progetto donne durante la gravidanza e seguire i loro bambini nel tempo. Le partecipanti sono, quindi, volontarie che decidono autonomamente di prendere parte al progetto di ricerca. In questo articolo discutiamo delle caratteristiche del progetto NINFEA che sono più vicine al concetto di produzione collaborativa di conoscenza. In particolare, si discute degli aspetti relativi alle motivazioni che spingono alla partecipazione allo studio, alla scelta delle ipotesi di ricerca da studiare e alla definizione della popolazione di interesse dello studio.

Parole chiave: coorte di nuovi nati, Internet, partecipazione

ABSTRACT

In the last decade a new form of participation of the citizens in research activities and in the production of knowledge has emerged. This development has started to reach epidemiological research, as illustrated in the recent section «EpiChange» of the journal *Epidemiologia & Prevenzione*. The conduction of epidemiological research through the engagement of citizens and new forms of production of knowledge – including peer-production – is still in its infancy.

In 2005, we started in Italy a birth cohort, the NINFEA project, which uses the Internet to recruit pregnant women and to follow-up their children. Participants are volunteers who decide to take part in the research project. In this paper, we consider the aspects of the NINFEA project that are consistent with the concept of collaborative production of knowledge. In particular, we discuss issues related to the motivation of the participants, the selection of the research hypotheses to be evaluated and the definition of the population of interest of the study.

Keywords: birth cohort, Internet, participation



[...] Progetto NINFEA: si tratta di una classica coorte di nuovi nati in cui si ottengono informazioni in maniera longitudinale durante il corso della vita e, quando possibile, si raccolgono campioni biologici [...]
[...] Il sistema di reclutamento, invece, non è classico. Abbiamo sperimentato la possibilità di coinvolgere i partecipanti attraverso Internet [...]

INTRODUZIONE

Dal 2005 è attivo il progetto NINFEA (Nascita e INFanzia: gli Effetti dell'Ambiente), che utilizza Internet per creare una coorte coinvolgendo donne in gravidanza e seguendo, attraverso questionari on-line, i loro bambini nel tempo.¹ Si tratta di una classica coorte di nuovi nati in cui si ottengono informazioni in maniera longitudinale durante il corso della vita (*life-course epidemiology*) e, quando possibile, se ne raccolgono campioni biologici (nel progetto NINFEA sono raccolti campioni di saliva del bambino e della mamma quando il bambino compie 6 mesi). **Il sistema di reclutamento, invece, non è classico.** Abbiamo sperimentato la possibilità di coinvolgere i partecipanti attraverso Internet; la coorte è, quindi, composta da donne che durante la gravidanza vengono a conoscenza dello studio e decidono autonomamente di partecipare, registrandosi sul sito Internet del progetto: www.progettoninfea.it. Non c'è una popolazione caratterizzata geograficamente a cui i ricercatori chiedono di partecipare, ma una popolazione molto vasta che comprende, teoricamente, qualsiasi donna incinta che abbia accesso a Internet, che parli italiano a sufficienza per compilare un questionario on-line e che sia interessata allo studio. Questo approccio era stato scelto principalmente per due motivi:

- poter condurre una coorte di vaste proporzioni contenendone i costi e le difficoltà organizzative;
- non limitare lo studio alla popolazione di riferimento del centro di ricerca, come, invece, spesso avviene negli studi di coorte di nuovi nati.

Lo studio NINFEA è forse il primo esempio di una coorte di ampie dimensioni condotta interamente via Internet.

Lo studio include ora più di 7.000 partecipanti.

Nel 2005 non si era forse pienamente consapevoli del carattere innovativo dell'approccio che abbiamo deciso di utilizzare. In altri articoli abbiamo discusso di aspetti metodologici, principalmente derivanti dalla selezione introdotta dall'utilizzo di Internet e dal coinvolgimento di volontari.^{2,3} Abbiamo mostrato che per studi di natura eziologica la selezione non si traduce necessariamente in distorsione e che, quindi, il nostro approccio non comporta una perdita di validità. Sugli aspetti metodologici c'è ancora molto da lavorare, ma, alla luce della nuova sezione «EpiChange», proposta a partire dallo scorso anno da *Epidemiologia & Prevenzione*,⁴ in questo intervento vogliamo descrivere in che modo l'ap-



proccio del progetto NINFEA si inserisce o si discosta dal concetto di *peer-production of knowledge*, ben descritto in un recente articolo di Tallacchini e Biggeri apparso proprio nella sezione «EpiChange».⁵

DIFFUSIONE DELL'ESISTENZA DELLO STUDIO

Abbiamo già descritto in altre pubblicazioni i canali che utilizziamo per diffondere l'esistenza della coorte NINFEA e, quindi, fare sì che le mamme in gravidanza possano decidere se partecipare o meno allo studio.^{1,6,7} Questi metodi si sono comunque modificati parzialmente nel tempo e può essere utile descrivere come avviene attualmente la diffusione dell'esistenza della coorte.

Vengono utilizzati sia metodi attivi sia passivi. Per metodi attivi, o metodi *offline*, intendiamo tutti i canali di diffusione che comportano una qualche forma di contatto da parte dei ricercatori con le possibili partecipanti, quali, per esempio, volantini distribuiti in occasione della consegna del libretto di gravidanza o di referti per esami eseguiti dalle gestanti, poster affissi nei consultori o negli ospedali, interventi durante i corsi di preparazione al parto. La maggior parte di questi metodi si rivolge a una popolazione abbastanza ben definita da un punto di vista geografico. Nel nostro studio, per motivi contingenti, utilizziamo forme di diffusione attiva in Piemonte e in Toscana.

I metodi passivi, o metodi *on-line*, includono, invece, forme di diffusione in cui il partecipante (e non il ricercatore) ha un ruolo di ricerca attiva dell'informazione che riguarda lo studio. Questi metodi comprendono, per esempio, link al progetto NINFEA su siti ad ampia diffusione o siti di alcuni ospedali

[...] il progetto non nasce da un'iniziativa dei partecipanti o da un'esigenza esplicita della popolazione e, in questo senso, è più simile ad approcci tradizionali che a esperienze di produzione di conoscenza "tra pari". Nella nostra visione, tuttavia, ciò si è verificato solamente per motivi contingenti. [...]

selezionati, forum di discussione sulla gravidanza, campagne Facebook. La caratterizzazione geografica delle persone che vengono a conoscenza dell'esistenza dello studio tramite forme passive è più limitata, poiché potenzialmente un link on-line è accessibile da qualsiasi luogo. C'è chiaramente un'area di sovrapposizione tra gli approcci attivi e quelli passivi. Un link su un sito di un ospedale di Torino, per esempio, è sì accessibile da qualsiasi luogo, ma sarà utilizzato principalmente, o solamente, da persone residenti nell'area di riferimento di quell'ospedale.

In figura 1 è riportata, a titolo di esempio, la distribuzione degli accessi dall'Italia al sito del progetto NINFEE da parte di nuovi utenti tra il 27.10.2007 (quando è stato attivato il monitoraggio con Google analytics) e il 31.12.2014 (figura 1).

MOTIVAZIONI CHE SPINGONO LE PARTECIPANTI AD ADERIRE AL PROGETTO

La partecipazione alla coorte avviene su base volontaria. Non viene direttamente chiesto alle donne di partecipare a uno studio epidemiologico, ma viene presentato lo studio attraverso canali attivi o passivi e decide di parteciparvi soltanto chi ne è interessato.

La distinzione può sembrare sottile, ma è rilevante, in quanto le motivazioni alla partecipazione possono essere differenti. E' diverso se la richiesta avviene, per esempio, durante un ricovero ospedaliero o se la decisione avviene in maniera autonoma senza dover rispondere a una richiesta esplicita. Nella presentazione dello studio NINFEE sono ben descritte ed esplicitamente dichiarate le finalità di ricerca, mentre non sono previsti incentivi di tipo economico o

di salute tramite messaggi di prevenzione più o meno mirati alle caratteristiche dei partecipanti. Non esistono, quindi, benefici individuali diretti, anche se l'impegno richiesto dallo studio è notevole. Questo è forse un limite e allo stesso tempo un punto di forza dello studio: chi partecipa ha evidentemente interesse verso gli obiettivi di ricerca. Va considerato che il progetto non nasce da un'iniziativa dei partecipanti o da un'esigenza esplicita della popolazione e, in questo senso, è più simile ad approcci tradizionali che a esperienze di pari produzione di conoscenza. Nella nostra visione, tuttavia, ciò si è verificato solamente per motivi contingenti. Il progetto è nato su iniziativa di ricercatori interessati a capire l'effetto di esposizioni che agiscono in età precoce sulla salute del bambino e dell'adulto, ma l'infrastruttura che abbia-

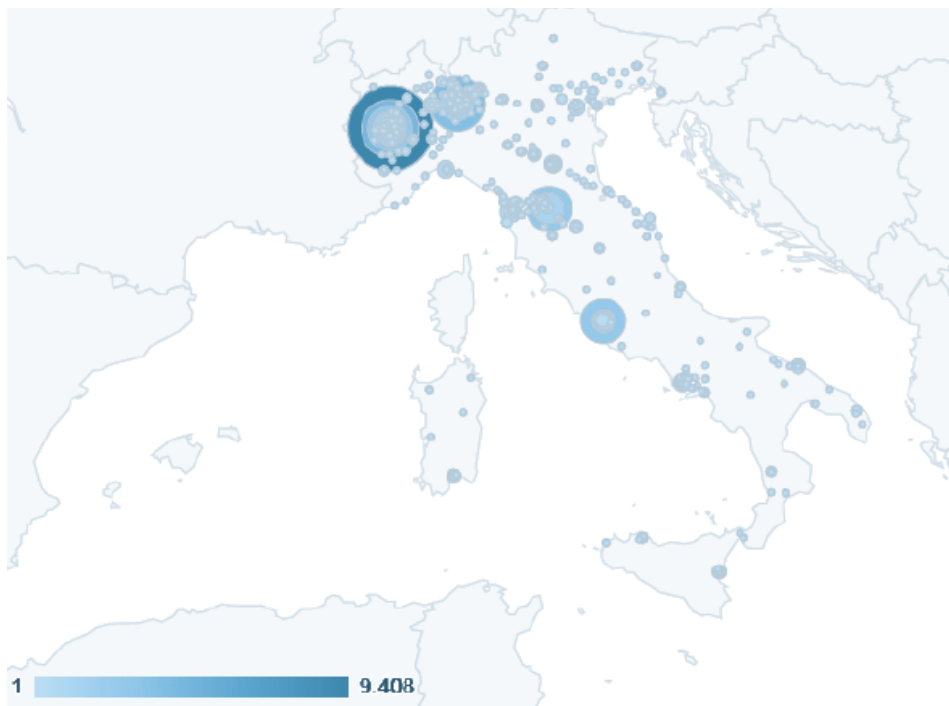


Figura 1. Provenienza geografica in Italia dei 47.983 nuovi utenti che hanno visitato il sito NINFEE tra il 27.10.2007 (quando è stato attivato Google analytics sul progetto NINFEE) e il 31.12.2014. Fonte: Google analytics (Google e il logo Google sono marchi registrati di Google Inc. e sono utilizzati per gentile concessione).

Figure 1. Geographical distribution in Italy of the 47,983 new users of the NINFEE website between 27.10.2007 (when Google analytics was activated on the NINFEE project) and 31.12.2014. Source: Google analytics (Google and the Google logo are registered trademarks of Google Inc., used with permission).

[...] Anche se non si è ancora verificato nei fatti, in potenza il progetto NINFEA può essere il mezzo con cui mettere in pratica un'iniziativa di ricerca da parte di gruppi organizzati di cittadini che decidono di promuovere la partecipazione al progetto in una area/popolazione/comunità che abbia interesse a esplorare un'ipotesi di ricerca specifica [...]

mo approntato esiste al di là delle nostre motivazioni. Se un gruppo di persone è interessato agli effetti di una particolare condizione espositiva, può utilizzare il progetto NINFEA come struttura già esistente per condurre una coorte di nuovi nati in una determinata area. Ovviamente, è necessario tenere conto delle usuali considerazioni sul potere statistico e sulla possibilità del progetto di rispondere alle ipotesi di ricerca di interesse (si veda a questo proposito il paragrafo successivo). Anche se non si è ancora verificato nei fatti, in potenza il progetto NINFEA può essere il mezzo con cui mettere in pratica un'iniziativa di ricerca da parte di gruppi organizzati di cittadini che decidono di promuovere la partecipazione al progetto in una area/popolazione/comunità che abbia interesse a esplorare un'ipotesi di ricerca specifica, dopo aver discusso con i ricercatori che lavorano al progetto NINFEA le eventuali modifiche da approntare ai questionari dello studio. Bisogna, infine, considerare che in una coorte di nuovi nati i veri partecipanti sono i bambini e non le loro mamme. E', quindi, necessario che ci sia un momento in cui i bambini vengano coinvolti direttamente e consapevolmente nello studio. Su questo tema, ci sono esperienze recenti che utilizzano Internet. Nella coorte danese DNBC (*Danish National Birth Cohort*), che coinvolge quasi 100.000 bambini, è stato recentemente utilizzato un sito apposito⁸ per condurre un questionario separato per i bambini di 11 anni, che, fino al questionario precedente della coorte, quello dei 7 anni, erano stati "intervistati" tramite i loro genitori. Ci si propone di ripetere esperienze di questo tipo anche per i bambini inclusi nella coorte NINFEA.

CHI DETERMINA LE IPOTESI DI RICERCA A CUI RISPONDERE TRAMITE IL PROGETTO NINFEA

Finora le ipotesi di ricerca che abbiamo studiato o stiamo valutando sono state decise dal gruppo di ricercatori che lavorano al progetto NINFEA o nell'ambito di collaborazioni internazionali, come il progetto europeo CHICOS.⁹ Sulla decisione delle ipotesi di ricerca ha grande influenza anche il sistema di finanziamento pubblico alla ricerca, dato che è ovviamente necessario dare priorità ai progetti che vengono approvati e finanziati da un ente.

I cittadini in generale e, in particolare, i partecipanti al progetto NINFEA potrebbero, però, avere un ruolo importante nella definizione delle ipotesi. Abbiamo accennato alla possibilità di utilizzare il progetto NINFEA come strumento per rispondere a iniziative specifiche di gruppi organizzati di cittadini. E' anche possibile che un contributo alla scelta delle ipotesi di ricerca da studiare provenga direttamente dai partecipanti allo studio.

Nel settembre 2012, mentre lavoravamo alla preparazione delle domande del questionario dei 7 anni per lo studio, abbiamo sollecitato all'interno della pagina Facebook del progetto NINFEA¹⁰ proposte per domande di particolare interesse da inserire nel questionario. In quel frangente l'iniziativa non portò a grandi risultati (abbiamo ricevuto solo due risposte), ma l'esperienza può e deve essere ripetuta in maniera più organizzata insistendo maggiormente sulle ipotesi di ricerca piuttosto che sulla formulazione di domande specifiche per il questionario.

E' anche possibile, tramite iniziative di *crowdfunding*, spostare l'onere della scelta delle priorità da dare alle ipotesi di

ricerca dai classici enti finanziatori ai partecipanti allo studio e ai cittadini. A questo proposito, nella nostra esperienza siamo stati contattati da partecipanti che proponevano iniziative per supportare economicamente lo studio. Per il momento non ci è stato possibile rispondere positivamente a queste proposte per mancanza di una struttura amministrativa e un contesto istituzionale adeguati a ricevere finanziamenti di questo tipo. La possibilità di utilizzare modelli di *crowdfunding* non è specifica del progetto NINFEA, in quanto tali forme di finanziamento potrebbero essere applicate in qualsiasi studio epidemiologico. E' vero, però, che l'approccio del progetto NINFEA, che favorisce una partecipazione volontaria, motivata e attiva, si presta particolarmente a sperimentazioni in questa direzione.

IL CONCETTO DI POPOLAZIONE NEL PROGETTO NINFEA

In epidemiologia solitamente la popolazione in studio è caratterizzata da un punto di vista geografico e temporale. Questo approccio è fondamentale in un'ottica di sanità pubblica e per un sistema di monitoraggio e sorveglianza tradizionale, come quello dei registri tumori. Quando si vuole conoscere l'incidenza di una data malattia, quindi, ci si riferisce solitamente a una popolazione specifica in un dato periodo temporale.

Nel progetto NINFEA questa definizione di popolazione perde di significato. La popolazione è costituita dai partecipanti al progetto e le conoscenze prodotte sono di tipo eziologico, quindi, specifiche per una data popolazione target. Si tratta, invece, di conoscenze a valenza più generale che mirano a in-

[...] Il progetto NINFEA ha alcune caratteristiche che vanno nella direzione di una dimensione partecipativa alla ricerca, tra cui l'avvalersi del contributo di volontari con una motivazione specifica verso la ricerca, il potenziale coinvolgimento dei partecipanti nella definizione delle priorità di ricerca sia in termini scientifici sia in termini di finanziamento, l'utilizzo di una definizione di popolazione che va al di là della base geografica. [...] una possibile linea di sviluppo è la trasformazione del progetto nella direzione di un portale dedicato alla produzione e comunicazione di conoscenza nel campo della *life-course epidemiology*. [...]

dicare che una data esposizione è causa di una data malattia. Come si ripete spesso in questo ambito, il fatto che il fumo abbia causato il tumore del polmone tra i medici inglesi nel British Doctor Study ci dice qualcosa sugli effetti del fumo anche al di là della popolazione dei medici inglesi. Nel progetto NINFEA ci si è concentrati, quindi, sull'identificazione di associazioni di tipo causale e si è tenuto come punto fermo quello di evitare ragionamenti epidemiologici sulle misure di prevalenza e incidenza. Questo proprio perché non è chiaro quale sia la popolazione di riferimento dello studio. E' possibile, però, ripetere lo stesso ragionamento dal punto di vista del partecipante allo studio. Per quale motivo una misura di incidenza proveniente da una coorte tradizionale che ha come riferimento una popolazione ben determinata dal punto di vista temporale e geografico dovrebbe essere più di interesse per un partecipante a quello studio rispetto ad analoghe misure provenienti dallo studio NINFEA per un partecipante allo studio NINFEA? In altre parole, le misure di prevalenza o incidenza provenienti da uno studio hanno interesse per chi vi partecipa proprio in quanto membro di quello stu-

dio. Il fatto che si tratti di partecipanti su base volontaria, che probabilmente condividono le finalità e la filosofia del progetto e hanno quindi una maggiore omogeneità, potrebbe incrementare l'interesse per i partecipanti (e per gruppi di popolazione simili ai partecipanti) verso le misure di prevalenza e incidenza prodotte dallo studio. Questo comporta un cambiamento di prospettiva, in cui la popolazione non è identificata su base geografica (e temporale), ma sulla base della partecipazione allo studio: quello che hanno in comune le persone non è più l'essere residenti in uno stesso territorio, ma l'essere membri del progetto NINFEA, anche se residenti in zone diverse d'Italia. Questo scenario apre diverse questioni che dovranno essere approfondite, ma possiamo già sostenere che, di fatto, per alcune finalità di conoscenza si verifica un disancoramento del concetto di popolazione da quello di residenza su base geografica.

CONCLUSIONI

Come descritto, il progetto NINFEA ha alcune caratteristiche che vanno nella direzione di una dimensione partecipativa alla ricerca, tra cui l'avvalersi del contributo di volontari con una

motivazione specifica verso la ricerca, il potenziale coinvolgimento dei partecipanti nella definizione delle priorità di ricerca sia in termini scientifici sia nel loro finanziamento, l'utilizzo di una definizione di popolazione che va al di là della base geografica. Tali caratteristiche derivano dall'approccio scelto per la conduzione dello studio, che utilizza Internet per il coinvolgimento di partecipanti volontari. E' possibile immaginare ulteriori sviluppi nella direzione di facilitare una maggiore conoscenza collaborativa. In particolare, il progetto NINFEA applica un approccio tradizionale per la gestione dei dati e per la loro accessibilità e non prevede forme di condivisione dei dati tra i partecipanti né modalità avanzate per la comunicazione e la discussione dei risultati. Nella forma attuale, lo studio assolve ai suoi scopi di ricerca, ma una possibile linea di sviluppo è la trasformazione del progetto nella direzione di un portale dedicato alla produzione e comunicazione di conoscenza nel campo della *life-course epidemiology*.

Conflitti di interesse dichiarati: nessuno.

Finanziamento: lo studio è stato parzialmente supportato dalla Compagnia di San Paolo e dalla Regione Piemonte

BIBLIOGRAFIA

1. Richiardi L, Baussano I, Vizzini L, Douwes J, Pearce N, Merletti F; NINFEA cohort. Feasibility of recruiting a birth cohort through the Internet: the experience of the NINFEA cohort. *Eur J Epidemiol* 2007;22(12):831-7.
2. Pizzi C, De Stavola BL, Pearce N et al. Selection bias and patterns of confounding in cohort studies: the case of the NINFEA web-based birth cohort. *J Epidemiol Community Health* 2012;66(11):976-81.
3. Richiardi L, Pizzi C, Pearce N. Commentary: Representativeness is usually not necessary and often should be avoided. *Int J Epidemiol* 2013;42(4):1018-22.
4. Biggeri A. Gli epidemiologi e la scienza degli altri. *Epidemiol Prev* 2014;38(3-4):151-2.
5. Tallacchini M, Biggeri A. La vigilanza dei cittadini sulla salute ambientale tra tecnologie digitale e genomica. *Epidemiol Prev* 2014;38(5):292-301.
6. Richiardi L, Pizzi C, Parlotti D. Internet-Based Epidemiology. In: Wolfgang A, Pigeot I (eds). *Handbook of Epidemiology. Second Edition, Volume I*. Berlino, Springer, 2014.
7. Bajardi P, Paolotti D, Vespignani A et al. Association between Recruitment Methods and Attrition in Internet-Based Studies. *PLoS One* 2014;9(12):e114925.
8. <http://www.club11.dk/?guest=true>
9. www.chicosproject.eu
10. <https://it-it.facebook.com/pages/Progetto-NINFEA/210478081656>