

NEDERLANDSE SAMENVATTING

Dit proefschrift gaat over slaap bij kinderen met cerebrale parese (CP). CP is een bewegingsstoornis die wordt veroorzaakt door een beschadiging van de hersenen tijdens de vroege ontwikkeling (d.w.z. voor het eerste levensjaar) van het kind. De lichamelijke beperkingen van kinderen met CP gaan vaak gepaard met bijkomende stoornissen of aandoeningen zoals epilepsie, cognitieve stoornissen, of voedingsproblemen, die samen bijdragen aan een verminderde fysieke gezondheid en een lagere kwaliteit van leven. Daarnaast verhoogt het hebben van CP het risico op chronische gezondheidsproblemen op latere leeftijd. Hierdoor ontstaan er kritische vragen over preventieve gezondheidscomplicaties en strategieën om de gezondheid en het welzijn van deze kwetsbare populatie te verbeteren.

In de afgelopen jaren zijn gezondheidsbevorderende strategieën met name gericht op het stimuleren van een actieve leefstijl, door het verhogen van fysieke activiteiten en het verminderen van sedentair gedrag. Ook binnen de kinderrevalidatiebehandeling voor kinderen met CP wordt veel aandacht besteed aan het verbeteren van motorisch functioneren en optimaliseren van activiteiten gedurende de dag. Toch zou er meer winst kunnen worden behaald door een holistische 24-uurs visie te hanteren waarbij er aandacht is voor het héle spectrum van activiteiten gedurende zowel de dag én de nacht.

Gezonde slaap is essentieel voor de fysieke en mentale gezondheid van kinderen en speelt een cruciale rol bij de ontwikkeling van de hersenen. Kinderen met CP hebben een verhoogd risico op het ontwikkelen van slaapproblemen, welke serieuze negatieve gevolgen kunnen hebben voor zowel de gezondheid en het functioneren van het kind als voor het welbevinden van het hele gezin. Zo kunnen slaapproblemen bijvoorbeeld bestaande lichamelijke beperkingen van het kind in stand houden of verergeren, de kwaliteit van leven van het kind verder verlagen, alsook bijdragen aan psychologische uitputting van de ouders. Toch wordt er maar weinig aandacht besteed aan slaap in de kinderrevalidatie en worden slaapproblemen bij kinderen met CP vaak over het hoofd gezien. Het is dan ook van belang dat dit letterlijke 'gapende gat' wordt gedicht.

Om de bewustwording en kennis over het belang van slaap bij kinderen met CP te vergroten, en om uiteindelijk de manier waarop er naar slaap wordt gekeken en gehandeld in de praktijk te veranderen, is onderzoek nodig op dit gebied. We hopen dat een beter begrip van (en voor) slaapproblemen bij kinderen met CP, en de impact van deze problemen op het functioneren van het hele gezin, een opstap biedt voor de ontwikkeling en implementatie van nieuwe behandelingen en trajecten die de zorg voor slaap integreren in de huidige kinderrevalidatiepraktijk. Het doel van dit proefschrift is dan ook om de lezer wakker te

schudden over het belang van slaap binnen de (revalidatie)zorg voor kinderen met CP. Hiertoe is een mix van zowel kwantitatieve als kwalitatieve onderzoeken uitgevoerd onder kinderen met CP, hun ouders, alsook onder de zorgprofessionals die voor deze populatie zorgen. De volgende sectie geeft een overzicht van de bevindingen uit de onderzoeken die zijn opgenomen in dit proefschrift.

HOOFDBEVINDINGEN

DEEL I De perspectieven van ouders van kinderen met CP met betrekking tot de zorg voor slaap

Hoofdstuk 2 rapporteert de bevindingen van een kwalitatief onderzoek gericht op het begrijpen van de perspectieven van ouders met betrekking tot de zorg voor de slaap van hun kind met CP. Individuele, semi-gestructureerde interviews werden afgenomen bij achttien ouders van een jong kind (leeftijd 1–8 jaar) met CP op alle niveaus van functionele vaardigheden (Gross Motor Function Classification System (GMFCS) niveaus I–V). De interviews zijn opgenomen, getranscribeerd en geanalyseerd met behulp van inductieve thematische analyse. Er werden gedetailleerde beschrijvingen gegeven van de huidige situatie van de gezinnen met betrekking tot de slaapproblemen van hun kind en de daaruit voortvloeiende gevolgen. Deze bleken niet alleen van invloed te zijn op het welzijn van het kind, maar ook door te werken op de slaap van de ouders en het functioneren van het gezin als geheel. Ouders beschreven de talrijke uitdagingen waarmee ze worden geconfronteerd bij de zorg voor de slaap van hun kind, die worden belemmerd door vermeende tekortkomingen in de gezondheidszorg, zoals beperkte aandacht voor slaap en gebrek aan kennis bij zorgverleners. Ouders uitten hun zorgen en behoeften met betrekking tot hun thuisomgeving (kind- en gezinsaspecten, en de beschikbaarheid van sociale steun) en de zorgomgeving (klinische praktijken en attitudes van zorgverleners, evenals de bredere organisatie van slaappzorg). Concluderend toont deze kwalitatieve studie aan dat de impact van slaapproblemen op gezinnen, ondergewaardeerd is. Om de vicieuze cirkel van slaapproblemen en de desastreuze gevolgen voor het welzijn van gezinnen van kinderen met CP te doorbreken, moeten we ons bewust worden van de door ouders geïdentificeerde problemen en het belang van slaap erkennen binnen de kinderrevalidatie. Slaap moet routinematig worden aangekaart door klinici tijdens controlemomenten door middel van een gezinsgerichte en multidisciplinaire benadering. Hierbij wordt een proactieve, ondersteunende, begripvolle, niet-oordelende houding gevraagd van zorgprofessionals.

DEEL II Evaluatie van de zorg voor slaap in de kinderrevalidatie

Hoofdstuk 3 evalueert de zorg voor slaap door de klinische praktijken en kennis met betrekking tot slaap (binnen de domeinen slaapfysiologie, slaapstoornissen en slaaphygiëne) te beoordelen onder zorgprofessionals werkzaam binnen de kinderrevalidatie. In totaal namen 30 revalidatieartsen, 54 paramedici, alsook 63 controles deel aan dit cross-sectionele enquête-onderzoek. De resultaten lieten zien dat slaap niet consequent wordt aangekaart door revalidatieprofessionals. Slechts een minderheid ($\leq 20\%$) was van mening dat ze over voldoende slaapkennis beschikten om in de klinische praktijk met vertrouwen om te gaan met het onderwerp slaap. Hoewel revalidatieartsen de hoogste scores lieten zien op alle domeinen van slaapkennis, overschreed geen van beide zorgverlenergroepen een score van 50% correct op totale slaapkennis, terwijl paramedici en controles gelijke scores lieten zien. Er werd beperkte kennis waargenomen over slaaphygiëneregels die betrekking hebben op de dag, zoals blootstelling aan natuurlijk licht en voldoende lichaamsbeweging. De zeer beperkte blootstelling aan slaapeducatie van zorgverleners kan leiden tot gevoelens van incompetentie en onvoldoende slaapkennis, welke hun handelen in de klinische praktijk kunnen beïnvloeden. Deze bevindingen benadrukken de noodzaak om zorgprofessionals op te leiden en te empoweren met gedegen kennis, vaardigheden en vertrouwen die nodig zijn om slaapproblemen bij kinderen met neurologische ontwikkelingsstoornissen zoals CP adequaat aan te kunnen pakken, alsook om ouders hierbij te begeleiden.

DEEL III Het integreren van slaap in de zorg voor kinderen met CP door middel van een 24-uurs activiteiten benadering

Hoofdstuk 4 presenteert een evidence-informed klinische praktijkgids die zorgprofessionals aanmoedigt om een 24-uurs benadering te hanteren in de zorg voor kinderen met CP en hun ouders. In deze praktijkgids wordt de rationale achter, de ontwikkeling van, evenals klinische ervaringen met en implicaties van *De 24-uurs Activiteiten Checklist* beschreven. Deze checklist is een beknopt, praktisch hulpmiddel dat gemakkelijk kan worden ingezet in de routinematige zorg om problemen rondom fysieke activiteiten en slaap te kunnen signaleren. Daarnaast presenteert de praktijkgids een infographic met daarin een 24-uurs activiteiten richtlijn voor kinderen met CP, welke als doel heeft om begeleiding van en voorlichting voor ouders en zorgprofessionals op dit gebied te faciliteren. De hulpmiddelen in dit hoofdstuk dragen bij aan het vergroten van de bewustwording en aan een verandering van de praktijk, door klinici te ondersteunen bij het signaleren en begeleiden van kinderen die een risico lopen op problemen met bewegen en slapen. Gehoopt wordt dat door het systematisch integreren van een 24-uurs activiteiten beoordeling in de klinische praktijk, een belangrijke stap wordt gezet in de richting van het bevorderen van een gezonde leefstijl van kinderen met CP.

Hoofdstuk 5 rapporteert de resultaten van de *Slaap* sectie van *De 24-uurs Activiteiten Checklist* één jaar na implementatie binnen drie kinderrevalidatie-instellingen in Utrecht. Checklists werden verzameld van 90 kinderen met CP (leeftijdswaarde 0–11j; mediane leeftijd 5j; 41,1% meisjes; 84,4% ambulante) en 157 zich normaal ontwikkelende kinderen (leeftijdswaarde 0–12j; mediane leeftijd 5j; 49,7% meisjes) en hun ouders. Uit de resultaten kwam naar voren dat slaapproblemen vaak worden gerapporteerd door de ouders van kinderen met CP, en dat deze kinderen een grotere kans hebben op het hebben van een slaapprobleem dan hun zich normaal ontwikkelende leeftijdsgenoten. Bovendien werd gevonden dat niet-ambulante kinderen met CP ernstiger worden getroffen door slaapproblemen dan ambulante kinderen, zowel in frequentie van optreden als in het aantal slaapproblemen. 's Nachts wakker worden, pijn/ongemak in bed en vermoeidheid overdag kwamen vaker voor bij kinderen met CP en vaker bij kinderen met een niet-ambulante motorische status. Ouders van niet-ambulante kinderen waren minder tevreden over de slaap van hun kind en hun eigen slaap. Een derde van de ouders van kinderen met CP gaf aan dat zij vaak of altijd last hebben van slaaptkort, vergeleken met een kwart van de ouders van zich normaal ontwikkelende kinderen. De resultaten van deze studie vragen om meer aandacht voor het belang van slaap in de kindergezondheidszorg, en met name in kwetsbare populaties zoals kinderen met CP en hun ouders.

DEEL IV Het meten van de 24-uurs activiteiten van kinderen met CP

Hoofdstuk 6 beschrijft de 24-uurs activiteiten (d.w.z. fysieke activiteit, sedentair gedrag en slaap) alsook de naleving van de 24-uurs activiteiten richtlijn, bij een steekproef van ambulante kinderen met CP (GMFCS niveaus I–III) zoals gemeten door middel van actigrafie. De 24-uurs activiteiten van kinderen werden gedurende zeven opeenvolgende dagen gedurende 24 uur per dag geregistreerd met behulp van activiteitenmonitors gedragen om de heup (overdag) en pols ('s nachts). In totaal zijn er 362 dagen en 340 nachten van 54 kinderen met CP (leeftijdswaarde 3-12j; mediane leeftijd 6,5j; 44,4% meisjes; GMFCS-verdeling: niveau I (n=30), niveau II (n=15), niveau III (n=9)) meegenomen in de analyses. De gemiddelde dagelijkse draagtijd was 746,2±48,9 min, waarvan kinderen gemiddeld 33,8% in lichte fysieke activiteit (251,6±58,7 min/dag), 5,2% in matige-tot-intensieve fysieke activiteit (38,5±20,1 min/dag), en de resterende 61,1% sedentair (456,1±80,4 min/dag) doorbrachten. Fysieke activiteit nam af, terwijl sedentair gedrag toenam met toenemend GMFCS-niveau. In totaal voldeed 13% van alle kinderen aan de richtlijn voor fysieke activiteit en 35,3% voldeed aan de richtlijn voor leeftijdsafhankelijke slaapduur. Het aandeel kinderen dat voldeed aan de gecombineerde 24-uurs richtlijn was laag (5,9%), vooral bij de kinderen met GMFCS-niveau III (0%). De resultaten van deze studie dragen bij aan een

beter begrip van de 24-uurs activiteiten van kinderen met CP, en vestigen de aandacht op het belang van het betrekken van het gehele activiteitencontinuüm in de (revalidatie)zorg voor deze populatie.

Hoofdstuk 7 vergelijkt de uitkomsten van subjectief gemeten slaap met uitkomsten van apparatuur voor het meten van slaap in een steekproef van ambulante kinderen met CP (GMFCS-niveaus I–III). De slaap van de kinderen werd geregistreerd over een periode van zeven opeenvolgende nachten in de thuissituatie door middel van een slaapdagboek, actigrafie en een bedsensor. Slaapuitkomsten van de meetinstrumenten omvatten: totale bedtijd (TBT), totale slaaptijd (TST), inslaaplatentie, aantal ontwakingen, waaktijd na in slaap vallen (WAK) en slaapefficiëntie. De overeenstemming tussen de meetinstrumenten werd beoordeeld met behulp van Bland-Altman-plots en intraclass correlatiecoëfficiënten (ICC's) met afzonderlijke analyses voor alle nachten, schoolnachten en weekendnachten. In totaal werden 277 nachten van 38 kinderen met CP (leeftijdssrange 2–12j; mediane leeftijd 6j; 47% meisjes) meegenomen in de analyses. Er werd een slechte overeenstemming gevonden voor alle parameters tussen i) actigrafie en slaapdagboek (met uitzondering van TBT; $ICC > .86$) en ii) actigrafie en bedsensor (met uitzondering van TBT; $ICC > .84$). Er was een redelijk tot goede overeenstemming tussen slaapdagboek en bedsensor voor TBT ($ICC > .83$), TST ($ICC > .70$) en WAK tijdens weekendnachten ($ICC = .55$). Andere slaapuitkomsten lieten een slechte overeenstemming zien tussen het slaapdagboek en de bedsensor. Onderzoekers en klinici worden geacht zich bewust te zijn van de discrepanties tussen instrumenten voor slaapmonitoring bij kinderen met CP. Deze bevindingen zijn met name nuttig voor klinici die geïnteresseerd zijn in het documenteren van slaappatronen gedurende langere periodes in de thuissituatie waarin traditionele polysomnografie een uitdaging is om te implementeren. Aangeraden wordt om een combinatie van apparatuur en subjectieve metingen van slaap te gebruiken, rekening houdend met de kenmerken van het kind, om een volledig beeld te krijgen van de slaap bij kinderen met CP.