

Nederlandse samenvatting

Amyotrofische Laterale Sclerose (ALS) en Progressieve Spinale Musculaire Atrofie (PSMA) zijn neurodegeneratieve en fatale aandoeningen. Patiënten ervaren toenemende zwakte van spieren, wat leidt tot problemen bij het spreken, problemen bij de ademhaling en verlamming. Ongeveer 50% van de patiënten vertoont naast de fysieke klachten ook veranderingen in het denken of in het gedrag. Als gevolg hiervan worden patiënten afhankelijk van hun omgeving en de meerderheid van deze zorgtaken wordt uitgevoerd door naasten. Zorg verlenen aan een naaste kan intens en stressvol zijn; uit eerder onderzoek blijkt dat naasten vaak gevoelens van psychologische stress of overbelasting ervaren. Niet alle naasten ervaren echter deze gevoelens. Het is onduidelijk welke factoren ten grondslag liggen aan de ontwikkeling van psychologische stress en overbelasting bij naasten van mensen met ALS of PSMA. Het 'demand en control' model suggereert dat het welzijn van naasten wordt bepaald door twee dimensies; zorgvragen en de ervaren controle over het uitvoeren van de zorgtaken. Op basis van dit model wordt verwacht dat naasten waaraan hoge eisen worden gesteld met betrekking tot het verlenen van zorg en die een laag gevoel van controle ervaren over het uitvoeren van de zorgtaken, een verhoogd risico op het ervaren van fysieke en psychische problemen hebben. Ondanks dat het duidelijk is dat naasten van mensen met ALS of PSMA een verhoogd risico hebben op het ontwikkelen van psychische en lichamelijke klachten, is er een gebrek aan ondersteunende interventies voor deze naasten.

Het doel van dit proefschrift is het verbeteren van de ondersteuning voor naasten van mensen met ALS of PSMA om hun welzijn te verbeteren. In dit proefschrift willen we 1) ontrafelen welke naaste- en patiëntfactoren gerelateerd zijn aan overbelasting en psychologische stress bij naasten van mensen met ALS of PSMA; 2) kennis verzamelen over de ondersteuningsbehoeften van naasten van mensen met ALS of PSMA; 3) een ondersteuningsprogramma ontwikkelen voor naasten van mensen met ALS of PSMA en het ondersteuningsprogramma zowel kwantitatief als kwalitatief evalueren.

Deel 1 Factoren gerelateerd aan gevoelens van overbelasting en psychologische stress

In **hoofdstuk 2** is een systematisch literatuuronderzoek uitgevoerd om inzicht te krijgen in factoren die samenhangen met gevoelens van overbelasting bij naasten van patiënten met ALS. In totaal zijn 25 studies geïnccludeerd waarin kwantitatieve relaties tussen naaste- en patiëntfactoren en overbelasting zijn beoordeeld. De kwaliteit van het bewijs voor deze relaties werd geclassificeerd met behulp van de 'Grading of Recommendations Assessment Development and Evaluation'. Er is een hoge kwaliteit van bewijs gevonden voor de relatie tussen gevoelens van overbelasting bij naasten en de patiëntfactor 'gedragsstoornissen'. Dit betekent dat naasten van patiënten met gedragsstoornissen meer gevoelens van overbelasting ervaren. Er is een matige kwaliteit van bewijs gevonden voor de relaties tussen gevoelens van overbelasting bij naasten en de factoren 'gevoelens van depressie' van naasten en 'fysiek functioneren' van patiënten. De overige naastefactoren (gevoelens van angst, psychologische stress, sociale ondersteuning, functioneren van het gezin, leeftijd) en patiëntfactoren (bulbaire functie, motorische functie, ademhalingsfunctie, ziekte duur, disinhibitie, executief functioneren, cognitief functioneren, depressieve gevoelens, leeftijd), toonden een lage tot zeer lage kwaliteit van bewijs voor hun verband met gevoelens van overbelasting in naasten. De conclusie van dit onderzoek is dat een sterker gevoel van overbelasting bij naasten is gerelateerd aan fysieke- en gedragsmatige veranderingen van de patiënt en depressieve gevoelens van de naaste. Deze kennis kan in de klinische praktijk worden gebruikt om te identificeren welke naasten risico lopen op gevoelens van overbelasting. Dit onderzoek toonde tevens aan dat er nog weinig onderzoek is gedaan naar persoonlijke factoren van naasten zelf welke gerelateerd kunnen zijn aan gevoelens van overbelasting. Daarom wordt verder onderzoek met betrekking tot deze persoonlijke factoren aanbevolen.

In **hoofdstuk 3** werd de ontwikkeling van psychologische stress en de relatie tussen copingstijlen (de manier waarop naasten met een probleemsituatie omgaan) en psychologische stress op de lange termijn onderzocht bij naasten van mensen met ALS. Vierenvijftig naasten werden over een periode van 10 maanden gevolgd in een gerandomiseerd gecontroleerd onderzoek (RCT) voor patiënten in de vroege stadia van ALS. Emotiegerichte, taakgerichte en vermijdingsgerichte copingstijlen werden gemeten. De resultaten toonden aan dat de psychologische stress van naasten elke maand toenam met 0.24 punten op de Hospital Anxiety and Depression Scale. De emotiegerichte copingschaal was weliswaar gerelateerd aan psychologische stress, maar had geen invloed op de ontwikkeling van psychologische stress op de lange termijn. Hierbij dient wel opgemerkt te worden dat emotiegerichte coping en psychologische stress moeilijk van elkaar te onderscheiden constructen zijn en dat de overlap tussen deze constructen de relatie tussen deze factoren zou kunnen verklaren. De vermijdingsgerichte copingstijl en de taakgerichte copingstijl waren niet gerelateerd aan psychologische stress. De overgrote meerderheid van de naasten gaf aan alle drie de copingstijlen te gebruiken. Focussen op één copingstijl in de ondersteuning van naasten lijkt om deze reden te simplistisch voor de complexe situaties waarmee ze worden geconfronteerd. Mensen hebben misschien andere copingstrategieën nodig in verschillende situaties. Naasten coachen bij het leren toepassen van verschillende copingstrategieën in verschillende stressvolle situaties kan gunstig zijn voor hun welzijn.

Om de toepasbaarheid van het ‘demand en control’ model op de situatie van naasten van mensen met ALS of PSMA te onderzoeken, hebben we een cross-sectionele studie uitgevoerd, beschreven in **hoofdstuk 4**. In deze studie werd onderzocht hoe zorgeseisen (lichamelijke beperkingen en gedragsveranderingen bij patiënten) en controle (ervaren controle over het uitvoeren van zorgtaken) psychologische stress in naasten van mensen met ALS of PSMA beïnvloeden. Naast de directe effecten van de zorgeseisen en mate van ervaren controle over het uitvoeren van zorgtaken op psychologische stress, hebben we ook onderzocht of de mate van controle over het uitvoeren van zorgtaken een moderator of mediator is in de relatie tussen zorgeseisen en psychologische stress. De resultaten toonden aan dat meer gedragsveranderingen bij de patiënt en lagere ervaren controle over het uitvoeren van zorgtaken in naasten, werden geassocieerd met meer psychologische stress. Fysieke beperkingen van de patiënten waren niet gerelateerd aan psychologische stress in naasten. Er werden geen moderatie of mediatie effecten gevonden van controle over het uitvoeren van zorgtaken op de relatie tussen zorgeseisen en psychologische stress. Deze studie benadrukt dat zowel het monitoren van gedragsveranderingen bij patiënten, als het bieden van psycho-educatie en ondersteuning met betrekking tot het omgaan met deze veranderingen van belang is. De ervaren controle over het uitvoeren van zorgtaken kan een goed aangrijppingspunt zijn voor interventies voor naasten.

Deel 2 Ondersteuningsbehoeften van naasten

Hoofdstuk 5 beschrijft de resultaten van de kwalitatieve studie gericht op het in kaart brengen van de ondersteuningsbehoeften van naasten van mensen met ALS. Individuele semi-structureerde interviews werden afgenomen bij 21 naasten. Er kwamen in totaal vier globale behoeften naar voren: ‘meer persoonlijke tijd’, ‘ondersteuning bij het aanvragen van hulpmiddelen’, ‘psychologische ondersteuning’ en ‘contact met andere naasten’. Ondanks de behoefte aan ondersteuning waren naasten terughoudend om steun voor zichzelf te zoeken of steun te accepteren. Het welzijn van de patiënten was hun belangrijkste prioriteit en de eigen behoeften werden als ondergeschikt beschouwd. Daarom is het belangrijk dat professionals de rol van naasten in een vroeg stadium erkennen, hun welzijn monitoren en herhaaldelijk verschillende ondersteuningsmogelijkheden aanbieden. Een proactieve benadering vanuit de

professionals in de gezondheidszorg is essentieel om te kunnen bijdragen aan de preventie van psychische en lichamelijke problemen bij naasten van patiënten bij ALS. Deze studie biedt verder concrete handvatten voor de ontwikkeling van interventies voor deze naasten. Omdat naasten behoefte hebben aan ondersteuning, maar ook een gebrek aan tijd ervaren, kan e-health een optie zijn om ondersteuning te ontvangen op een minder tijdrovende manier.

Deel 3 Een ondersteuningsprogramma: ondersteuning voor naasten

Hoofdstuk 6 presenteert het protocol van de RCT, waarin de effecten worden onderzocht van een psychosociaal ondersteuningsprogramma voor partners van patiënten met ALS of PSMA vergeleken met een wachtlijst controlegroep. Het doel van het ondersteuningsprogramma was het vergroten van het gevoel van controle over het uitvoeren van zorgtaken, om daarmee de psychologische stress bij partners te verminderen. De interventie was gebaseerd op Acceptatie en Commitment Therapie en bestond uit 1 face-to-face contact, 6 online begeleide modules en 1 telefonisch contact. De online modules bevatten psycho-educatie, psychologische- en mindfulnessoefeningen, praktische tips en informatie, en boden daarnaast mogelijkheden voor contact met andere naasten. Partners werden door het programma geleid door een psycholoog die specifiek getraind was voor het doel van deze studie.

Hoofdstuk 7 presenteert de resultaten van de RCT die de effectiviteit van het ondersteuningsprogramma evalueerde, welke is beschreven in hoofdstuk 6. In totaal werden 148 partner-patiënt koppels geïncludeerd in de studie. Hoewel naasten het programma positief hebben beoordeeld, zijn er geen significante verschillen tussen de interventiegroep en wachtlijst controlegroep gevonden op de psychologische stress, gevoelens van overbelasting en kwaliteit van leven van de naasten. Ook bleek het psychosociale ondersteuningsprogramma voor de naasten geen invloed te hebben op de psychologische stress of kwaliteit van leven van de patiënt. Een significant positief interventie-effect werd gevonden op de interventie variabele self-efficacy met betrekking tot controle over gedachten. Bijna de helft van de naasten voltooidde de interventie niet. De meest gerapporteerde reden om de interventie niet af te ronden was een gebrek aan tijd. We hebben geconcludeerd dat de juiste timing van dit ondersteuningsprogramma cruciaal is om te kunnen profiteren van de inhoud. De optimale timing kan per individu verschillen en is waarschijnlijk afhankelijk van meerdere kenmerken van zowel de patiënt als de naaste zelf.

Inzicht in de ervaringen met de verschillende componenten van het ondersteuningsprogramma (programma evaluatie) en in de wijze waarop naasten baat hebben bij het programma (mechanismen van impact) wordt gegeven in **hoofdstuk 8**. In totaal zijn 23 naasten geïnterviewd die in de RCT waren geïncludeerd (hoofdstuk 7). Naasten waren over het algemeen positief over de verschillende onderdelen van het programma, maar ambivalente reacties werden geuit over de mindfulnessoefeningen en de functies voor contact met andere naasten. Het belangrijkste mechanisme van impact van het programma was volgens de naasten dat ze zich meer bewust werden van hun eigen situatie. Ze gaven aan dat het programma hen hielp om controle te ervaren over hun situatie, om negatieve emoties en gedachten te accepteren en om er voor hun partner te zijn. Daarnaast hielp het dat ze zich erkend voelden in hun rol en dat deze rol als belangrijk wordt gezien door zorgprofessionals. Naasten gaven aan dat ze een meer gepersonaliseerd programma met betrekking tot de volgorde en timing van de modules zouden willen. Ook gaven naasten aan dat zij het ondersteuningsprogramma voor een langere periode zouden willen voortzetten.

Hoofdstuk 9, de algemene discussie, geeft een kort overzicht van de belangrijkste bevindingen gevolgd door een reflectie op deze bevindingen aan de hand van de drie

hoofddoelen van dit proefschrift. Dit heeft geleid tot de volgende 10 aanbevelingen voor het bieden van ondersteuning aan naasten van mensen met ALS of PSMA:

1. Erken naasten en standaardiseer de ondersteuning van naasten.
2. Wees voorzichtig met het gebruik van het woord mantelzorger.
3. Maak tijd vrij om de naasten privé te zien.
4. Vraag naasten actief naar hun behoeften.
5. Monitor het welzijn van naasten.
6. Monitor cognitieve- en gedragsveranderingen bij patiënten met ALS of PSMA en verstrek psycho-educatie en ondersteuning bij deze veranderingen.
7. Informeer naasten proactief en vroeg in het ziekteproces over ondersteuningsopties en herhaal dit.
8. Bied verschillende ondersteuningsopties.
9. Ondersteun naasten bij het omgaan met specifieke moeilijke situaties.
10. Pas e-health toe in de zorg.

Daarnaast beschrijft dit hoofdstuk aanbevelingen voor verder onderzoek. Voor de verdere ontwikkeling van interventies voor naasten, wordt meer onderzoek naar het werkingsmechanisme van interventies geadviseerd. Onderzoek naar werkingsmechanismen van interventies maakt het mogelijk om meer zicht te krijgen op voor wie en op welke moment de interventie geschikt is. N=1 studies kunnen bijvoorbeeld worden ingezet om interventies nog grondiger te ontwerpen en door te ontwikkelen. Bovendien is er een verschuiving van aandacht nodig in het onderzoek naar het welzijn van naasten. In plaats van onderzoek te richten op patiëntfactoren die het welzijn van naasten kunnen beïnvloeden, is het ook nodig om te onderzoeken welke te beïnvloeden persoonlijke factoren van naasten bijdragen aan het ontwikkelen van psychologische stress. Vervolgens is meer onderzoek nodig naar hoe we naasten kunnen versterken en hoe we hun gevoel van controle kunnen vergroten tijdens het complexe ziekteproces van hun naaste met ALS of PSMA.

We concludeerden dat het ondersteuningsprogramma dat in deze studie werd ontwikkeld geen effect had op psychologische stress van naasten, ondanks dat het programma wel positief door hen werd beoordeeld. Het programma heeft wel het gevoel van controle over hun gedachten verbeterd. Tevens meldden naasten dat het programma hen hielp om controle te krijgen over de zorgsituatie, om negatieve emoties en gedachten te accepteren, om er te zijn voor hun partner en om zich erkend te voelen. Deze resultaten suggereren dat het ondersteuningsprogramma zou kunnen worden beschouwd als één van de beschikbare ondersteuningsopties voor naasten van patiënten met ALS of PSMA. Om voordelen van de interventie te ervaren lijkt het van belang dat naasten zelf meer invloed kunnen uitoefenen op welke module ze volgen, op welk tijdstip en in welk tempo.