

NEDERLANDSE SAMENVATTING (DUTCH SUMMARY)

Dit proefschrift beschrijft de resultaten van het COAD onderzoeksproject ("CO-creation At hand: the road to independence"). Het algehele doel van dit proefschrift was het genereren van wetenschappelijke kennis over de mogelijkheden en uitdagingen van bimanuele thuistraining voor kinderen met een unilaterale Cerebrale Parese (uCP).

Gezien de veelbelovende voordelen van thuisinterventies voor de bovenste extremiteit voor kinderen met Cerebrale Parese (CP), is een systematische review van de beschikbare literatuur over dit onderwerp noodzakelijk. **Hoofdstuk 2** beschrijft het protocol van een systematische review, met als doel om de haalbaarheid en het effect van de momenteel beschikbare ergo- en fysiotherapeutische thuisinterventies te onderzoeken. De systematische review werd ontwikkeld in overeenstemming met de 'Preferred Reporting Items for Systematic Review and Meta-Analysis Protocols (PRISMA-P) 2015'. Studies werden geïncludeerd indien primaire data werd verzameld, de deelnemers kinderen in de leeftijd < 18 jaar met om het even welk type van CP waren, en de interventie een ergo- of fysiotherapeutische thuisinterventie was. Ter vergelijking werden de volgende behandelingen meegenomen: geen therapie, gebruikelijke zorg, ergo- of fysiotherapie in het centrum, een alternatieve thuisinterventie en een medische interventie. Studies werden geïncludeerd indien gerapporteerd werd over haalbaarheid (dat wil zeggen aanvaardbaarheid, behoefte, implementatie, bruikbaarheid, aanpassing, uitbreiding of integratie) of over effectiviteit (dat wil zeggen kind-gerelateerde uitkomstmaten voor de bovenste extremiteit binnen alle levels van de 'International Classification of Functioning, Disability and Health' of ouder-/verzorger gerelateerde uitkomstmaten binnen het psychologische en sociale domein). Relevante studies werden geïdentificeerd door het doorzoeken van de databases MEDLINE, EMBASE, CINAHL, PsycINFO, Pedro, OTseeker en CPCI-S, evenals de trial registraties ICTRP en CENTRAL, de referentie-lijsten van opgenomen studies en door de verspreiding van een bibliografie van de geïncludeerde studies naar auteurs van opgenomen studies. Er waren geen beperkingen voor taal of publicatiejaar. De zoekstrategie bestond uit termen gerelateerd aan de populatie en interventie. Gegevens werden in tweevoud geëxtraheerd met behulp van een formulier voor digitale gegevensextractie.

Hoofdstuk 3 beschrijft de resultaten van deze systematische review. In totaal werden 47 studies geïncludeerd: 22 haalbaarheidsstudies (46,8%), 10 effectiviteitsstudies (21,3%) en 15 studies die beide rapporteerden (31,9%). Er was een grote variatie in kind karakteristieken, terwijl de overgrote meerderheid van de onderzoeken geen karakteristieken van de ouders rapporteerde. De behandelvorm was overwegend (gemodificeerde) 'Constraint-Induced Movement Therapy' (CIMT) (40%). De doelstellingen van de interventie, het gebruik van motorische leerprincipes en de coaching van ouders waren meestal niet gespecificeerd. De trainingsduur van de door ouders geleverde thuistraining varieerde van 2 weken tot 6 maanden en de intensiteit van 70 minuten tot 21 uur per week. De algehele therapietrouw van de training (implementatie) was matig tot hoog (62% tot 96,1%). De meeste haalbaarheidsstudies rapporteerden dat ouders het gemakkelijk vonden om het programma uit te voeren en het leuk vonden om hun kinderen vooruit te zien gaan (aanvaardbaarheid). Er konden geen conclusies over de effectiviteit van thuisprogramma's worden getrokken vanwege de grote variabiliteit in studie-, patiënt- en interventiekarakteristieken, interventies waarmee vergeleken werd en uitkomstmaten die werden gebruikt in de geselecteerde studies.

Ondanks consensus over de waarde van thuisinterventies voor de bovenste extremiteit in de revalidatie van kinderen met een uCP, bestaat er geen 'evidence-based best practice'. Het bevorderen van de therapietrouw van kinderen om zich aan een intensief programma te houden, terwijl het niveau van ouderlijke stress laag blijft, is een belangrijke uitdaging bij het ontwerpen van thuistrainingsprogramma's. Het integreren van impliciete motorische leerprincipes leek een veelbelovende methode om deze uitdaging op te lossen. In **hoofdstuk 4** beschrijven we twee protocollen voor bimanuele thuistrainingsprogramma's, één gebaseerd op impliciete motorische leerprincipes en één gebaseerd op expliciete motorische leerprincipes, voor kinderen met een unilaterale spastische CP van 2 tot 7 jaar. Kinderen krijgen doelgerichte, taak-specifieke, bimanuele training in hun thuisomgeving van hun ouders gedurende 3,5 uur per week gedurende 12 weken volgens een geïndividualiseerd programma. Ouders worden intensief gecoacht door een multidisciplinair team, bestaande uit een kindertherapeut en orthopedagoog. Beide programma's bestaan uit een voorbereidingsfase (doelen stellen, kennismakingsgesprekken met coaching professionals, ontwerpen van een geïndividualiseerd programma, instructie van ouders, huisbezoek) en een trainingsfase (training, video-opnamen, registraties als ook tele-coaching en huisbezoeken door het coaching team). De programma's contrasteren wat betreft de aanleerstrategie, dat wil zeggen hoe de ouders hun kind tijdens de training ondersteunen. In beide programma's geven ouders hun kind instructies en feedback die gericht zijn op de activiteit (dat wil zeggen taakgericht) of het resultaat van de activiteit (dat wil zeggen resultaatgericht). In het expliciete programma worden ouders echter ook geïnstrueerd om exacte instructies en feedback te geven over de motorische uitvoering van de bimanuele activiteiten, terwijl in het impliciete programma het gebruik van beide handen en de juiste motorische uitvoering van de activiteit wordt uitgelokt door het aanpassen van de organisatie van de activiteiten. Met de beschreven protocollen willen we een volgende stap zetten in de ontwikkeling van de hoognodige evidence-based thuistrainingsprogramma's voor kinderen met een uCP.

Hoofdstuk 5 heeft als doel het fenomeen van therapie gerelateerde ouderlijke stress ('therapy-related parental stress' (TRPS)) bij ouders van kinderen met een lichamelijke beperking te conceptualiseren. Drie modellen gerelateerd aan ouderlijke stress worden beschouwd, namelijk algemene ouderlijke stress, belasting door zorgverlening bij ouders van kinderen met een beperking en ervaringen van deze ouders met de therapie van hun kind. We definiëren TRPS als de subjectieve stress en daaropvolgende veranderingen in functioneren en gezondheid ervaren door een ouder van een kind met een lichamelijke beperking als reactie op paramedische therapieën (fysiotherapie, ergotherapie en/of logopedie). Een theoretisch model wordt voorgesteld om het proces van TRPS te beschrijven. Beschikbare vragenlijsten zullen hoogstwaarschijnlijk niet valide en responsief zijn om de (veranderingen in) stressbeleving van ouders in verband met therapie die hun kind krijgt vast te leggen. Dit Hoofdstuk biedt een eerste definitie van TRPS en een theoretisch model om de processen met betrekking tot dit onderwerp te visualiseren. Empirisch testen van de gepresenteerde componenten en hun samenhang is nodig om het model te bevestigen of te verbeteren. Een vragenlijst die specifiek het construct van TRPS meet is nodig, evenals evaluatie van TRPS in de klinische praktijk en onderzoek.

Hoofdstuk 6 beschrijft de ontwikkeling van een Nederlandse vertaling van de 'Lifestyle Assessment Questionnaire for children with cerebral palsy' (LAQ-CP), aangepast voor cross-culturele verschillen. Het vertaalproces bestond uit 6 fasen, volgens een richtlijn voor cross-culturele aanpassingen, namelijk dubbele 'forward- en back-vertalingen', beoordeling door een expertgroep, een pilot-test en een procesaudit. Er waren verschillende aanpassingen aan de vragenlijst nodig vanwege cross-culturele verschillen. Als resultaat van de pilottest werd de lay-out aangepast aan de wensen van de gebruikers. De procesauditeur verklaarde dat het proces uitgebreid was en waardeerde de kwaliteit van het werk. Het project resulteerde in een Nederlandse vertaling van de LAQ-CP, aangepast voor cross-culturele verschillen. Validatie van de vertaalde vragenlijst is vereist voor gebruik in de klinische praktijk en onderzoek wordt aanbevolen.

Veel onderzoeken slagen er niet in het beoogde aantal deelnemers te includeren, waardoor wetenschappelijke en ethische problemen ontstaan. De COAD-studie naar thuistrainingsprogramma's voor kinderen met een uCP ervoer wervingsproblemen, hoewel de door ouders verleende thuisbenadering voldoet aan de recente ontwikkelingen in de gezondheidszorg in Nederland. Het project gepresenteerd in **hoofdstuk 7** beoogde de belemmeringen voor de werving in de COAD-studie te identificeren. Deze summatieve, multidimensionale evaluatie bestond uit informele gespreksinterviews waarin betrokkenen reflecteerden op de factoren die succesvolle werving van deelnemers aan de COAD-studie belemmerden. Belemmeringen voor implementatie en werving werden geclusterd volgens de constructen van de 'Consolidated Framework for Implementation Research' (CFIR). Member checking valideerde de bevindingen. In totaal hebben 41 stakeholders bijgedragen aan de evaluatie. Belemmeringen voor de implementatie van de thuistrainingsprogramma's werden geïdentificeerd binnen elk domein van de CFIR (interventiekenmerken, externe setting, interne setting, kenmerken van individuen en proces). Door ouders verleende thuistraining werd als zeer complex ervaren en in strijd met de druk op en de behoeften van de ouders. Veel ouders gaven de voorkeur aan de alternatieve groepsinterventies in de centra. De betrokkenheid van een klankbordgroep werd zeer gewaardeerd en er kwamen kansen voor verdere verbeteringen naar voren. Daarnaast werd het belang van onderzoeksconsortia benadrukt. De geschiktheid van de 'randomized controlled trial' (RCT) als studiedesign werd bekritiseerd. De bevindingen van deze studie zijn samengevat in een tool die een dozijn aanwijzingen geeft voor de succesvolle werving van deelnemers voor onderzoek in de kinderrevalidatie.

Het doel van **hoofdstuk 8** is om de kind- en ouder-gerelateerde effecten van bimanuele thuistraining, waarbij impliciet of expliciet motorisch leren werd gebruikt, te onderzoeken bij kinderen met een uCP. We presenteren een case series van 14 kinderen (2–7 jaar) die de training voltooiden. Vijf kinderen voerden het impliciete en negen het expliciete programma uit. Beide omvatten doelgerichte, taakspecifieke training gedurende 3,5 uur/week gedurende 12 weken. Een therapeut en orthopedagoog coachten ouders bij het geven van de training. Vooruitgang op bimanuele doelen en TRPS waren van primair belang, gemeten met de 'Canadian Occupational Performance Measure' (COPM) en door ouderinterviews. Gegevens werden verzameld bij baseline (T0) halverwege de training (T1), aan het einde van de training (T2) en na 12 weken (T3). Op de COPM 'performance schaal' werd een klinisch relevante verandering gezien in 50% (7/14), 86% (12/14) en 85% (11/13) en, op de 'satisfaction schaal', in 43% (6/14), 64% (9/14) en 54% (7/14) van de kinderen, respectievelijk op T1, T2 en T3. Tijdens de interviews gaven sommige ouders aan dat

ze stress hadden ervaren vanwege de intensiteit van de training. De secundaire uitkomstmaten toonden een neiging tot vermindering van therapie gerelateerde en generieke ouderlijke stress. Er werd geconcludeerd dat de programma's de bimanuele prestaties van kinderen en ouderlijke stress positief lijken te beïnvloeden.

Een procesevaluatie van de complexe bimanuele thuistrainingsprogramma's is cruciaal om accurate conclusies te trekken en aanbevelingen te doen voor implementatie in de klinische praktijk en verder onderzoek. **Hoofdstuk 9** beschrijft het protocol van de procesevaluatie, gericht op het systematisch beoordelen van de getrouwheid van de thuistrainingsprogramma's, het onderzoeken van de mechanismen die bijdragen aan hun effecten op kind-gerelateerde en ouder-gerelateerde uitkomsten en het onderzoeken van de invloed van contextuele factoren. Een 'mixed methods embedded design' werd gebruikt dat voortkomt uit het pragmatisme paradigma. Het kwalitatieve onderdeel behelsde een generieke kwalitatieve benadering. De procesevaluatiecomponenten getrouwheid (kwaliteit), geleverde dosis (volledigheid), ontvangen dosis (blootstelling en tevredenheid), werving en context werden onderzocht. De dataverzameling omvatte de registratie van de aanwezigheid van therapeuten en orthopedagogen bij een cursus met betrekking tot de thuistrainingsprogramma's; een vragenlijst voor de instructeur om deze cursus te evalueren; een rapportageformulier voor de therapeut met betrekking tot de voorbereidingsfase; registratie en video-analyses van de thuistraining; interviews met ouders en vragenlijsten die moesten worden ingevuld door de therapeut en orthopedagoog met betrekking tot het proces van training; en focusgroepen met therapeuten en orthopedagogen, evenals registratie van uitvalpercentages en -redenen, om de gehele thuistrainingsprogramma's te evalueren. Inductieve thematische analyse werd gebruikt om kwalitatieve gegevens te analyseren. Kwalitatieve en kwantitatieve bevindingen werden samengevoegd door middel van meta-inferentie.

Hoofdstuk 10 presenteert de resultaten van de procesevaluatie. De programma's bleken niet volledig geïmplementeerd zoals bedoeld, maar vertoonden een goede therapietrouw van 79% van de beoogde trainingsintensiteit. Over het algemeen ervoeren ouders de thuistraining als positief. Ze waren goed in staat om de therapie te geven. Activiteiten uit het dagelijks leven werden het gemakkelijkst geoefend. Voor de kinderen was het programma veeleisend. Toch vonden ouders dat het programma de moeite waard was, omdat de bimanuele prestaties van hun kind verbeterden. Bovendien vonden ouders het programma in zijn geheel tijdrovend. De extra druk en tijdsinvestering resulteerden in stress bij enkele ouders. Ouders ervoeren ook de programmaduur van 12 weken als te lang. De gecombineerde coaching door de therapeut en orthopedagoog was een zeer gewaardeerd onderdeel van het programma. De instructiecursus voor zorgprofessionals, de instructievideo's voor ouders, de taakanalyse, de telefonische afspraken en de huisbezoeken droegen allemaal positief bij aan het programma. Desondanks werd de frequentie van de afspraken als te hoog beschouwd wanneer het programma vorderde, de gesprekken via de telefoon hadden beperkingen voor de coaching door de orthopedagoog, alle betrokkenen waren geïrriteerd door de problemen met het systeem voor het delen van gegevens en ouders vonden het niet prettig om het registratieformulier in te vullen.

CP-onderzoek wordt gedomineerd door op groepen gebaseerde designs en de RCT werd lang als superieur beschouwd. Het 'single-case experimenteel design' (SCED) biedt een rigoureuze alternatief, waarin de heterogeniteit van de populatie in acht wordt genomen. De studie beschre-

ven in **hoofdstuk 11** is gericht op het kritisch evalueren van SCED-onderzoeken uitgevoerd binnen de populatie van kinderen en adolescenten met CP. Er werd een scoping review uitgevoerd. Studies werden geïdentificeerd door elektronische databases te doorzoeken en geselecteerd als ze rapporteerden over een SCED-studie van kinderen en/of adolescenten tot 21 jaar met CP. Demografische, methodologische en statistische gegevens werden geëxtraheerd. Artikelen werden beoordeeld met behulp van de 'Risk of Bias in N-of-1 Trials (RoBiNT) Scale' en beoordeeld op kwaliteit van rapportage met behulp van de 'Consolidated Standards of Reporting Trials (CONSORT) extension for N-of-1 trials (CENT 2015)'. Opmerkingen met betrekking tot sterktes en beperkingen werden geëxtraheerd en geanalyseerd. Studies onderzochten de effecten van een breed scala aan interventies op verschillende uitkomstmaten. De meeste SCED-typen werden in meerdere onderzoeken toegepast. Alle studies gebruikten visuele inspectie in plaats van visuele analyse, vaak aangevuld met basale descriptieve statistiek. Het risico op bias was groot, vooral wat betreft interne validiteit. Veel items van de CENT waren onvoldoende gerapporteerd. Hoewel het aantal onderzoeken in de loop van de tijd was toegenomen, was hun risico op bias niet afgenomen. Verschillende voordelen en beperkingen van SCED werden geïdentificeerd. De conclusies waren dat SCED potentie heeft in de context van gepersonaliseerde, evidence-based geneeskunde bij kinderen en adolescenten met CP, op voorwaarde dat de kwaliteit van het bewijs van de resultaten wordt verhoogd door het risico op bias te verkleinen.

In **hoofdstuk 12** wordt een algemene discussie gegeven van de belangrijkste bevindingen van de onderzoeken. Ten eerste wordt een 'logic model' gepresenteerd om de samenhang tussen de resultaten van de verschillende studies te beschrijven. Dit behelst assumpties, bevorderende en beperkende bronnen, programma activiteiten, output en uitkomsten. Ten tweede beschrijven we een nevenproject over de ontwikkeling van de Vragenlijst Ouderlijke Stress als gevolg van Therapie van het kind (VOST). Ten derde pleiten we voor een iteratief proces voor de ontwikkeling en evaluatie van interventies in de complexe setting van de kinderrevalidatie. De SCED maakt klinisch relevant interventie-onderzoek mogelijk. Daarna bespreken we enkele overkoepelende methodologische overwegingen: de 'mixed methods' benadering van het onderzoek, de betrokkenheid van kinderen bij het project, de gebruikte uitkomstmaten en een alternatieve statistische benadering. Concluderend ondersteunen onze resultaten het gebruik van bimanuele thuisstraining in de klinische praktijk. Programma's voor kinderen met uCP moeten omvatten: (1) a priori instructie van de zorgprofessionals, (2) een taakanalyse uitgevoerd door de therapeut, (3) uitwisseling van gefilmde trainingssessies en (4) geïndividualiseerde coaching van de ouders door een therapeut en orthopedagoog. Meer werk is noodzakelijk om onze bevindingen te bevestigen en om alternatieve bimanuele thuisstrainingsprogramma's te ontwikkelen. Er moet speciale aandacht worden besteed aan het coachingsproces, het welzijn van de ouders tijdens de thuisstraining, de manier waarop kinderen de training ervaren en de geschiktheid van motorische leerbenaderingen voor individuele kinderen, ouders en fases van leren. Er zijn aanvullende studies nodig om een volledig beeld te krijgen van de het construct van TRPS en om de beste manier te vinden om dit te meten. Tot slot worden toekomstige studies over de methodologische en statistische procedures van de SCED binnen de kinderrevalidatie bepleit.