

Summary Samenvatting



End

SUMMARY

Individuals with neuromuscular disorders often face challenges in walking ability due to leg muscle weakness. This restricts participation in daily activities. Lower limb orthoses, such as ankle-foot orthoses (AFOs) and knee-ankle-foot orthoses (KAFOs), are commonly provided in rehabilitation practices to improve walking in this population. Yet evidence for their effectiveness is limited. The main aim of this thesis, introduced in **chapter 1**, was to advance the knowledge on the effectiveness of lower limb orthoses in persons with neuromuscular disorders and to evaluate the effectiveness and cost-effectiveness of guideline-based provision of lower limb orthoses in expert settings on improving daily functioning of adults with neuromuscular disorders compared to lower limb orthoses provided in usual orthotic care.

Chapter 2 provides a Cochrane review in which we systematically reviewed the evidence for the effectiveness of AFOs to improve walking in adults with calf muscle weakness resulting from neuromuscular disorders. The review included 10 studies with a total of 186 participants with calf muscle weakness. The available evidence was of low-certainty, and indicated that carbon composite AFOs may reduce walking energy cost, increase walking speed, and enhance satisfaction. Furthermore, high orthopedic shoes may increase walking speed, while polypropylene and elastic AFOs may not increase walking speed. Due to very low-certainty evidence, we could not conclude on the effects on perceived walking effort, balance, and use. These results indicate that the use of carbon composite AFOs appear to be most advantageous in terms of improving walking ability in people with calf muscle weakness. Further research is warranted to examine comparative effects of different AFO properties, including AFO material, on the improvement of walking in this population.

The cohort study described in **chapter 3**, examined the effectiveness of lower limb orthoses that were provided according to the Dutch orthotic guideline for neuromuscular disorders in an expert setting, i.e. in specialized orthotic care. The study involved a group of mostly polio survivors, of which prospectively conducted measurements before and after specialized orthotic care were retrospectively analyzed. The specialist care orthoses, including AFOs and KAFOs, were compared to the existing lower limb orthoses the participants used at baseline and were previously provided elsewhere. Results showed that the specialist care orthoses improved personal goal attainment and perceived walking ability compared to the orthoses provided in usual care. In the participants that were provided with specialist care AFOs, additionally,

walking energy cost reduced with 9.5%,. Summarized, the study indicated that specialized orthotic care may improve daily functioning of people with neuromuscular disorders.

Consecutively, a randomized controlled trial was conducted to investigate the effectiveness of specialized orthotic care compared to usual orthotic care on the functioning of adults with neuromuscular disorders with an economic evaluation alongside. In **chapter 4**, the protocol of this study was described. After a baseline measurement, participants were randomly assigned to either specialized orthotic care or usual orthotic care, where they were provided with a (new) lower limb orthosis. Primary endpoints were attainment of personal goals 6 months after orthosis delivery and change in gross energy cost of walking from baseline to 6 months after delivery. Further, secondary outcomes including walking speed, gait biomechanics, stability, physical functioning, falls and fear of falling, perceived fatigue, and satisfaction were assessed, as well as costs and quality of life.

The results of the randomized controlled trial are presented in **chapter 5**. Specialized orthotic care led to a significantly higher personal goal attainment compared to usual orthotic care. Change in energy cost of walking was not significantly different between groups, although the specialized orthotic care group showed a significant and clinical relevant reduction of 12% in energy cost while energy cost did not change in the usual orthotic care group. Further, change in step length, walking speed, physical functioning, and orthosis satisfaction following orthotic provision differed between groups in favor of specialized orthotic care. Specialized orthotic care was found to be cost-effective from a societal perspective compared to usual orthotic care. Despite higher healthcare costs, it was likely also cost-effective from a healthcare perspective. This suggests that broader implementation of specialized orthotic care may lead to improved functioning of adults with neuromuscular disorders and societal cost savings.

In **chapter 6**, an explorative, cross-sectional study is described, in which we examined gait stability in polio survivors with unilateral calf muscle weakness compared to able-bodied individuals. The aims were to gain more insight into the consequences of leg muscle weakness on gait stability and to assess its relationship with energy cost of walking. We calculated gait variability and the margin of stability as measures of gait stability from prior collected biomechanical gait data measured at comfortable walking speed. Polio survivors demonstrated an impaired gait stability compared to able-bodied individuals over and above the effect of walking speed. An increased variability of step width and step length and a reduced margin of stability in anteroposterior direction

potentially contribute to elevated energy cost of walking. These findings help to increase our understanding of stability issues resulting from calf muscle weakness and provide insights for the improvement of orthotic interventions to enhance gait stability and reduce energy cost of walking in polio survivors.

Finally, in **chapter 7**, the findings from the previous chapters were discussed, and methodological considerations and implications for clinical practice were addressed. Recommendations for future research directions were provided to further advance knowledge in this field and improve functioning of adults with neuromuscular disorders through optimizing the provision of lower limb orthoses.

SAMENVATTING

Mensen met neuromusculaire aandoeningen ervaren vaak problemen tijdens het lopen door zwakte van de beenspieren. Dit belemmert hun in het uitvoeren van dagelijkse activiteiten, wat de kwaliteit van leven negatief beïnvloedt. Het verstrekken van beenorthesen, zowel enkel-voetorthesen (EVO's) als knie-enkel-voetorthesen (KEVO's), is een belangrijke behandeling binnen de revalidatie bij neuromusculaire aandoeningen om deze loopproblemen te verminderen. Echter, de wetenschappelijke evidentie voor de effectiviteit van beenorthesen bij neuromusculaire aandoeningen is beperkt. Het hoofddoel van dit proefschrift, zoals geïntroduceerd in **hoofdstuk 1**, was om deze evidentie te onderzoeken en om de effectiviteit en kosteneffectiviteit van het verstrekken van beenorthesen volgens de ortheserichtlijn in een expertise setting, i.e. specialistische orthesezorg te onderzoeken op het verbeteren van het functioneren van volwassenen met neuromusculaire aandoeningen in vergelijking met de gebruikelijke orthesezorg.

Hoofdstuk 2 toonde een Cochrane literatuuroverzicht van het bewijs voor de effectiviteit van EVO's om het lopen te verbeteren bij volwassenen met kuitspierzwakte als gevolg van neuromusculaire aandoeningen. In de Cochrane systematische review werden 10 studies met in totaal 186 mensen met kuitspierzwakte geïnccludeerd. De resultaten tonen laag bewijs voor de effectiviteit van koolstofcomposiet EVO's op het verminderen van het energieverbruik tijdens het lopen, het vergroten van de loopsnelheid en het verhogen van de tevredenheid ten opzichte van het lopen op schoenen. Daarnaast vonden we laag bewijs dat hoge orthopedische schoenen de loopsnelheid vergroten, maar dat EVO's gemaakt van polypropyleen en elastische materialen de loopsnelheid niet vergroten. Vanwege zeer lage bewijskracht konden we geen conclusies trekken over de effecten van EVO's op ervaren inspanning tijdens het lopen, balans en gebruik. Deze resultaten wijzen erop dat koolstofcomposiet EVO's het meest effectief lijken te zijn in het verbeteren van het lopen. Verder onderzoek is echter nodig om de effecten van EVO's met verschillende eigenschappen, waaronder het materiaal van de EVO, op de verbetering van het lopen in deze populatie te bestuderen.

De cohortstudie beschreven in **hoofdstuk 3** onderzocht de effectiviteit van beenorthesen verstrekt volgens ortheserichtlijn bij neuromusculaire aandoeningen in een expertise setting, ofwel specialistische orthesezorg. De studie omvatte een groep met voornamelijk mensen met de late gevolgen van polio, waarvan prospectief uitgevoerde metingen voor en na specialistische orthesezorg retrospectief werden

geanalyseerd. EVO's en KEVO's, verstrekt in specialistische zorg werden vergeleken met de bestaande beenorthesen die de deelnemers op baseline gebruikten en elders waren verstrekt. De resultaten toonden aan dat specialistische orthesezorg leidde tot een verbetering in het behalen van persoonlijke doelen en ervaren loopvaardigheid in vergelijking met de orthesen die op baseline werden gebruikt. Bij de deelnemers die EVO's kregen in het kader van de specialistische orthesezorg verminderde bovendien het energieverbruik tijdens het lopen met 9,5%. Samengevat toonde de studie aan dat specialistische orthesezorg het dagelijks functioneren van mensen met neuromusculaire aandoeningen mogelijk kan verbeteren.

Aansluitend werd er een onderzoek uitgevoerd om de effectiviteit en kosteneffectiviteit van specialistische orthesezorg te onderzoeken in vergelijking met gebruikelijke orthesezorg, met een methodologisch sterker onderzoeksdesign. In deze RCT, de orthese doelmatigheidsstudie, waarvan het protocol is beschreven in **hoofdstuk 4**, werden deelnemers na een baselinemeting geloot naar de interventiegroep die specialistische orthesezorg kreeg of de controlegroep die de gebruikelijke orthesezorg kreeg. Alle deelnemers kregen een beenorthese en werden tweemaal nagemeten tot 6 maanden na aflevering van de beenorthese. Primaire uitkomstmaten waren het behalen van persoonlijke doelen zes maanden na aflevering van de orthese en de verandering in het energieverbruik tijdens het lopen vanaf de baselinemeting tot zes maanden na aflevering. Verder werden secundaire uitkomstmaten waaronder loopsnelheid, biomechanische loopparameters, stabiliteit, ervaren fysiek functioneren, vallen en angst om te vallen, ervaren vermoeidheid en tevredenheid met de orthese onderzocht, evenals kosten en kwaliteit van leven.

In **hoofdstuk 5** werden de resultaten van de orthese doelmatigheidsstudie gepresenteerd. Specialistische orthesezorg leidde tot een significant hogere score op het behalen van persoonlijke doelen vergeleken met de gebruikelijke orthesezorg. Verandering in het energieverbruik tijdens het lopen verschilde niet significant tussen de groepen, hoewel de groep die specialistische orthesezorg kreeg een vermindering liet zien van 12% in het energieverbruik tijdens het lopen, terwijl het energieverbruik niet veranderde in de groep die gebruikelijke orthesezorg kreeg. Verder vonden we een positief effect van specialistische orthesezorg op het verbeteren van de staplengte, loopsnelheid, ervaren fysiek functioneren en orthesetevredenheid ten opzichte van de gebruikelijke orthesezorg. Specialistische orthesezorg bleek ook kosteneffectief vanuit het maatschappelijke perspectief vergeleken met gebruikelijke orthesezorg. Ondanks hogere zorgkosten vonden we dat specialistische orthesezorg waarschijnlijk ook kosteneffectief is vanuit een gezondheidszorgperspectief. Dit suggereert dat bredere

implementatie van specialistische orthesezorg kan leiden tot een verbeterd functioneren van volwassenen met neuromusculaire aandoeningen en tot maatschappelijke kostenbesparingen.

Om meer inzicht te krijgen in de instabiliteitsproblemen die mensen met neuromusculaire aandoeningen ervaren tijdens het lopen in relatie tot het vaak verhoogde energieverbruik tijdens het lopen, werd in **hoofdstuk 6** een exploratieve studie uitgevoerd waarin we de stabiliteit tijdens het lopen onderzochten bij mensen met unilaterale kuitspierzwakte als gevolg van polio in vergelijking met gezonde proefpersonen. Op basis van reeds verzamelde biomechanische data tijdens het lopen op comfortabele snelheid, berekenden we de variabiliteit van het lopen en de stabiliteitsmarges. Bij mensen met de late gevolgen van polio was de stabiliteit tijdens het lopen verminderd in vergelijking met gezonde proefpersonen. Daarnaast vonden we dat een verhoogde variabiliteit van de stapbreedte en staplengte, en een afgenomen voor-achterwaartse stabiliteitsmarge mogelijk bijdragen aan een verhoogd energieverbruik tijdens het lopen. Deze bevindingen helpen om inzicht te krijgen in stabiliteitsproblemen als gevolg van kuitspierzwakte. Dit kan waardevol zijn voor de verbetering van orthesebehandelingen om de stabiliteit tijdens het lopen te verbeteren en energieverbruik tijdens het lopen te verminderen bij mensen met beenspierzwakte als gevolg van neuromusculaire aandoeningen.

Ten slotte werden in **hoofdstuk 7** de bevindingen uit de voorgaande hoofdstukken bediscussieerd en methodologische overwegingen en implicaties voor de klinische praktijk besproken. Daarnaast werden aanbevelingen voor toekomstig onderzoek gegeven om de kennis op dit gebied verder uit te breiden met als doel het verbeteren van het functioneren van volwassenen met neuromusculaire aandoeningen door het optimaliseren van beenortheseverstrekkingen.