

Nederlandse samenvatting

In dit proefschrift behandelen we de ontwikkeling van een behandelprogramma voor restklachten na neuralgische amyotrofie (NA) en de creatie van twee meet instrumenten om patiënten tijdens hun herstelproces na NA te evalueren.

In hoofdstuk 1 beschrijven we de aandoening NA, die wordt gekenmerkt door plotseling optredende hevige pijn als gevolg van een zenuwontsteking in de schouder en arm, gevolgd door zwakte en atrofie van de aangedane spieren. Hoewel de aandoening eerder als zeldzaam werd beschouwd, is dit nu niet meer het geval, omdat ongeveer 1 op 1000 mensen elk jaar deze aandoening krijgt. In tegenstelling tot oude opvattingen over NA blijven veel patiënten last houden van restklachten zoals spierzwakte, gevoelsstoornissen en bewegingsbeperkingen. Ongeveer 50% van de patiënten vindt de behandeling van hun klachten door fysiotherapie ineffectief of zelfs verergerend. Compenserende bewegingen na NA blijken vaak ongunstig te zijn, wat resulteert in instabiliteit van het schouderblad. Deze ongunstige compensaties gaan gepaard met veranderingen in de aansturing vanuit de hersenen. Fysiotherapie is daarom zeer waarschijnlijk effectiever als het zich richt op het verminderen van deze ongunstige compensaties, gezien het aanpassingsvermogen van onze hersenen, in plaats van te focussen op minder beïnvloedbare factoren zoals krachtverlies en verminderd uithoudingsvermogen die door de zenuwschade worden veroorzaakt. Het verminderde uithoudingsvermogen zal door gedragsaanpassing moeten worden aangepakt.

In hoofdstuk 2 presenteren we een cohortstudie gericht op aanbevelingen voor uitkomstmaten en aangrijpingspunten voor revalidatie van mensen met NA. De focus lag op het begrijpen van stoornissen op weefselniveau en beperkingen op activiteitsniveau die samenhangen met aanhoudende symptomen na NA, en het identificeren van de meest geschikte uitkomstmaten om deze problemen vast te leggen.

De gegevens werden verzameld met een enquête gebaseerd op twee groepen: een groep patiënten van de polikliniek Neurologie en een groep van de multidisciplinaire plexuspoli van het Spierziektencentrum van het Radboudumc.

De deelnemers bestonden uit 248 patiënten die niet-erfelijke of erfelijke NA hadden doorgemaakt volgens de criteria voor deze aandoening, ten minste

zes maanden geleden, waarbij de zenuwbanen van de arm betrokken waren. Binnen de studie hebben we gebruik gemaakt van twee aangepaste klinische screeningsvragenlijsten en van de Shoulder Rating Questionnaire - Dutch Language Version, de Shoulder Pain and Disability Index (SPADI), de Shoulder Disability Questionnaire (SDQ) en de Overall Disability Sum Score.

De resultaten bevestigden dat veel mensen last houden van aanhoudende pijn en beperkingen. Meer dan de helft van de patiënten was beperkt door pijn en 60% van de patiënten zonder pijn had nog steeds last van restzwakte. Er was een sterke correlatie tussen pijn, instabiliteit van het schouderblad, moeilijkheden met activiteiten boven schouderhoogte, en toegenomen vermoeidheid. Meer dan de helft van de patiënten gaf aan dat "gewone fysiotherapie" niet effectief was of hun klachten zelfs verergerde.

We concludeerden dat pijn en vermoeidheid bij NA nauw samenhangen met voortdurende instabiliteit van het schouderblad en toegenomen spiervermoeidheid. De bevindingen onderschrijven de noodzaak van een uitgebreide revalidatieaanpak die al deze factoren aanpakt. We bevelen ook aan om de SPADI en SDQ te gebruiken in toekomstig onderzoek om de natuurlijke progressie en behandel-effecten bij NA te beoordelen.

In hoofdstuk 3 presenteren we een pilotstudie waarin de effectiviteit werd onderzocht van een nieuwe multidisciplinaire revalidatie-behandeling die fysiotherapie en ergotherapie combineert voor patiënten met NA. Het interventieprogramma bestond uit 16 weken therapie, met wekelijkse sessies tijdens de eerste vier weken, tweewekelijkse sessies van week vijf tot week acht, en maandelijkse sessies van week negen tot week zestien. Elke therapie sessie bestond uit één uur fysiotherapie en één uur ergotherapie. Acht deelnemers met NA deden mee aan het onderzoek. De metingen werden op drie tijdstippen uitgevoerd: een nulmeting drie maanden voorafgaand aan de interventie, een eerste beoordeling aan het begin van de interventie, en een eindbeoordeling na afloop van de interventie. De uitkomstmaten omvatten verschillende domeinen van de International Classification of Functioning, Disability and Health (ICF). De belangrijkste uitkomstmaten waren de Shoulder Rating Questionnaire - Dutch Language Version (SRQ-DLV) en de Canadian Occupational Performance Measure (COPM), die dienden om de uitvoerbaarheid en de tevredenheid met betrekking tot de belangrijkste dagelijkse activiteiten van de deelnemers te beoordelen. Secundaire uitkomstmaten waren onder andere de Disabilities of Arm Shoulder and



Hand (DASH) vragenlijst, krachtmetingen en de Self-Efficacy for Performing Energy Conservation Strategies Assessment (SEPECSA). De Short Form 36 (SF-36) vragenlijst werd gebruikt om de gezondheidsgerelateerde kwaliteit van leven te beoordelen en de Checklist Individual Strength 20 (CIS-20) om vermoeidheid te meten.

De resultaten lieten significante verbeteringen zien in COPM-prestatiescores (gemiddeld +2,3 punten op een 10-puntschaal) en tevredenheidsscores (gemiddeld +1,4 punten op een 10-puntschaal), evenals in SRQ-DLV (gemiddeld +14,8 op een X-puntschaal) en de subschaal voor gezondheidsverandering van de SF-36 (gemiddeld -37,5 punten op een Y-puntschaal). Krachtmetingen lieten een trend richting toegenomen kracht zien voor de serratus anterior spier. Deze bevindingen suggereren dat de waargenomen verbeteringen waarschijnlijk kunnen worden toegeschreven aan coördinatie- en gedragsaanpassingen aan zenuwbeschadiging en daardoor betere omgang met het bijbehorende functieverlies van de aangedane schouder. Deze pilotstudie geeft een indicatie dat patiënten met NA verbeteringen kunnen ervaren in hun dagelijkse en sociale activiteiten na multidisciplinaire revalidatie.

Hoofdstuk 4 is een klinimetrische studie gericht op manuele krachtmeting middels dynamometrie van de serratus anterior (SA) spier. De SA speelt een cruciale rol bij schouderbeweging en -stabiliteit. Het testen van deze kracht is van groot klinisch belang om patiënten met en zonder SA zwakte te onderscheiden in relatie tot de stabiliteit van het schouderblad. Echter, bestaande methoden met behulp van manuele dynamometrie in rugligging hebben een lage betrouwbaarheid en kunnen gemakkelijk worden beïnvloed door compensatie vanuit andere spieren. Dit onderstreept de behoefte aan meer betrouwbare en valide testmethoden. Als antwoord op die behoefte hebben we drie handmatige spiertesten voor de SA aangepast, zodat ze geschikt zijn voor manuele dynamometrie, en hun validiteit en betrouwbaarheid onderzocht. De veelgebruikte methode voor krachttesten van de SA in rugligging bleek een lage betrouwbaarheid te hebben, mogelijk beïnvloed door compensatie vanuit andere spieren zoals de pectoralis major en het bovenste deel van de trapezius. In eerder onderzoek werden twee handmatige, maximale aanspanningstesten gerapporteerd die optimale spieractiviteit van de SA in zittende houding produceerden, waarop we onze nieuwe testposities hebben gebaseerd.

Eenentwintig gezonde volwassenen werden onderzocht door twee beoordelaars in een liggende en twee zittende houdingen. Elke test werd twee keer herhaald.

De validiteit werd bepaald door de kracht bij manuele dynamometrie te evalueren in relatie tot de gemeten spieractiviteit van de SA, bovenste trapezius, en pectoralis major spieren, waarbij de drie testposities met elkaar werden vergeleken.

De betrouwbaarheid binnen en tussen beoordelaars werd bepaald door het berekenen van intra-klasse correlatiecoëfficiënten (ICC), kleinste detecteerbare verandering (SDC) en standaardmeetfout (SEM).

De resultaten toonden aan dat de activiteit van de SA spier het meest geïsoleerd te meten was in een zittende positie met de elleboog 90° gebogen en de bovenarm horizontaal naar voren wijzend. Deze positie resulteerde in de laagst gemeten krachtniveaus met een gemiddelde waarde van 296N (SEM 15,8N). De betrouwbaarheid binnen dezelfde beoordelaars leverde een ICC op van 0,66 (95% betrouwbaarheidsinterval 0,33:0,85), terwijl de betrouwbaarheid tussen verschillende beoordelaars 0,28 (95% betrouwbaarheidsinterval -0,10:0,61) betrof. De SDC was 127N en de SEM was 45,8 N.

We concludeerden dat de validiteit voor krachttesten van de SA optimaal is met proefpersonen in zittende positie en de elleboog 90° gebogen en bovenarm horizontaal naar voren wijzend. De betrouwbaarheid van deze procedure binnen beoordelaars is echter matig en de betrouwbaarheid tussen beoordelaars slecht, terwijl ook de hoge SDC-waarden het moeilijk maken om de meting te gebruiken bij herhaalde metingen.

Hoofdstuk 5 onderzoekt de haalbaarheid van reachable workspace metingen om bewegingsbeperkingen te meten bij patiënten met NA. De reachable workspace (RWS) is een gecomputeriseerd 3D-analysesysteem dat de relatieve oppervlakte (RSA) van het bereik van de arm van een individu meet. RWS is nuttig gebleken bij verschillende andere neuromusculaire aandoeningen.

In deze studie werd onderzocht of de RWS in staat is om beperkingen in het actieve bewegingsbereik van de bovenste extremiteit te kwantificeren bij patiënten met NA. De RSA's van patiënten met NA werden vergeleken met die van gezonde controles en gecorreleerd met andere maten voor het functioneren van de bovenste extremiteit. We maten 47 patiënten met NA en 25 gezonde controles, gematched voor leeftijd en geslacht. De RSA's van de deelnemers werden gemeten met de RWS en gecorreleerd met de scores van



de Shoulder Rating Questionnaire (SRQ), de Disabilities of Arm Shoulder and Hand (DASH) vragenlijst, en met krachtmetingen van de bovenste extremiteit met behulp van manuele dynamometrie.

De resultaten toonden aan dat patiënten met NA significant lagere waarden hadden voor bewegingsbereik van de aangedane arm voor alle kwadranten (behalve het onderste kwadrant aan de aangedane zijde van het lichaam) en voor de totale RSA waarde vergeleken met controles ($p < 0,001$). Er werden matige correlaties gevonden van de RSA met de DASH vragenlijst ($r = -0,42$) en met de SA spierkracht ($r = 0,41$).

We concludeerden dat de RWS beperkingen in het actieve bewegingsbereik van de aangedane arm kan detecteren bij patiënten met NA en matig gecorreleerd is met functionele maten van de bovenste extremiteit. We concludeerden ook dat de RWS meerwaarde heeft voor het kwantificeren van functionele beperkingen van de aangedane bovenste extremiteit bij NA en potentieel heeft als functionele klinische uitkomstmaat.

Hoofdstuk 6 is een op uitnodiging geschreven review en geeft een uitgebreid overzicht van de huidige kennis van en ontwikkelingen bij NA. We beschrijven de klinische uitingsvorm van NA als een aandoeningen van voornamelijk de zenuwen in de zenuwbanen van de arm, die deze plexus op meerdere plaatsen kan aantasten. Recente literatuur heeft echter deze NA uitingsvorm uitgebreid met aandoeningen die voorheen werden beschouwd als geïsoleerde zenuwverlammingen. We bespreken de epidemiologie van NA, met de nadruk op een jaarlijkse incidentie van ongeveer 1:1000. We onderzoeken de mogelijke etiologie van NA, inclusief de rol van voorafgaande infecties als trigger van de aandoening. We presenteren een state-of-the-art benadering van het (poli) klinisch onderzoek en de behandeling van patiënten die verdacht worden van NA. Behandeling tijdens de acute fase van NA bestaat meestal uit het gebruik van ontstekingsremmende medicijnen, de zogenaamde corticosteroïden en eventueel intraveneus immunoglobuline, gecombineerd met pijnstillende medicatie. We beschrijven de behandeling in de chronische fase, die bestaat uit fysiotherapie en ergotherapie; beide gericht op het helpen van patiënten bij het verbeteren van energiebehoud door middel van gedragsaanpassingen en de ontwikkeling van een preciezere en efficiëntere coördinatie van het schouderblad en de arm. Bij ernstigere zenuwbeschadiging met (bijna) volledige verlamming kan het operatief vrijleggen van de zenuw, zenuwtransplantatie of spiertransplantatie overwogen worden als chirurgische behandelopties. We concluderen dat NA een relatief veel

voorkomende en behandelbare aandoening is, zowel in de acute als chronische fase, die een gespecialiseerde behandelingsaanpak nodig heeft met prioriteit voor energiebalans en coördinatie van schouderblad- en armbewegingen.

