

SAMENVATTING

Achtergrond

Ergotherapie richt zich op het mogelijk maken van het uitvoeren van betekenisvolle activiteiten. Met het uitvoeren van deze activiteiten komen kinderen tot ontwikkeling, zelfexpressie en participatie. Jonge kinderen ontwikkelen zich vooral via spel en exploratie. Door met hun handen te reiken, te grijpen en te manipuleren, ontdekken baby's hun omgeving en ontwikkelen zij zowel sensomotorische als cognitieve vaardigheden. De ontwikkeling van handfunctie op jonge leeftijd vormt daarmee een belangrijke basis voor de uitvoering van betekenisvolle activiteiten later in het leven.

Baby's met unilaterale perinatale hersenschade (UPBI) hebben een hoog risico op het ontwikkelen van unilaterale spastische cerebrale parese (USCP). Een perinataal arterieel ischemisch herseninfarct (PAIS) en periventriculair hemorragisch infarct (PVHI) zijn de twee meest voorkomende vormen van UPBI, waarbij het bij PAIS vaker à terme geboren kinderen betreft en PVHI vaker bij prematuren voorkomt. USCP is een klinisch beeld dat motorisch wordt gekenmerkt door spasticiteit, verminderde selectieve motorische controle, spierzwakte en verlies aan sensomotorische integratie aan de overwegend aangedane zijde. Hierdoor kunnen er beperkingen in de fijn motorische vaardigheden ontstaan. Vroege herkenning van signalen van USCP is belangrijk voor diagnostiek van de klinische diagnose USCP, voor prognostische informatie aan ouders, en om tijdig met gerichte interventies te kunnen starten, juist in de periode waarin de hersenen het meest plastisch zijn.

Dit proefschrift richt zich op de lange termijn uitkomsten van bimanuele vaardigheden van kinderen met PAIS en PVHI, detectie en predictie van klinische signalen in de arm- en handfunctie bij baby's met UPBI en op de ervaringen van ouders met een baby met UPBI gedurende het eerste levensjaar ten aanzien van kinderergo- en kinderfysiotherapie.

Doel van het proefschrift

Dit proefschrift bestaat uit drie delen en heeft als doel om inzicht te verkrijgen in:

1. De bimanuele vaardigheden van kinderen met PAIS en PVHI, met en zonder USCP.
2. De handfunctie van baby's met UPBI in relatie tot de voorspelling en vroege detectie van klinische signalen van USCP.
3. De ervaringen en therapiebehoeften van ouders van een baby met UPBI en een hoog risico op het ontwikkelen van USCP gedurende het eerste levensjaar.

Deel I: Bimanuele vaardigheden bij kinderen met PAIS en PVHI

Bij kinderen met USCP ligt de nadruk in onderzoek vaak op de aangedane arm en hand, terwijl bimanuele vaardigheden juist het resultaat zijn van de samenwerking tussen beide handen, wat essentieel is voor het uitvoeren van dagelijkse activiteiten. Daarnaast krijgt de invloed van de onderliggende hersenpathologie (zoals PAIS of PVHI) relatief weinig aandacht, terwijl deze van invloed kan zijn op handfunctie, ook bij kinderen zonder USCP. In **hoofdstuk 2** hebben we de bimanuele vaardigheden (precisie en behendigheid) onderzocht van 52 kinderen met een voorgeschiedenis van PAIS (n = 27) of PVHI (n = 25), met en zonder de ontwikkeling van USCP op een mediane leeftijd van 12 jaar en 1 maand (spreiding 6–20 jaar). Kinderen met USCP vertoonden een lagere bimanuele behendigheid ten opzichte van kinderen zonder USCP, onafhankelijk van het type hersenschade. Bij kinderen zonder USCP bleek de groep met PAIS een betere bimanuele precisie te hebben dan de groep met PVHI. De kwaliteit van het gebruik van de aangedane hand en de behendigheid van de vingers van de dominante hand verklaarden samen 51% van de variantie in bimanuele vaardigheid bij kinderen met USCP. Bij kinderen zonder USCP, verklaarden de totale IQ-score samen met kwaliteit van het gebruik van de aangedane hand, 66% van de variantie in bimanuele precisie. De totale IQ-score samen met de behendigheid van de vingers van de dominante hand verklaarden 71% van de variantie in bimanuele behendigheid.

Deze bevindingen suggereren dat kinderen met PAIS zonder USCP betere bimanuele vaardigheden hebben, mogelijk gerelateerd aan de betere cognitieve functies. Opmerkelijk was dat ook bij kinderen zonder USCP een verminderde behendigheid van de vingers van de contralesionale hand werd gevonden wanneer vergeleken met de ipsilesionale hand, onafhankelijk van de onderliggende pathologie. Dit laat zien dat kinderen met UPBI, zonder USCP milde beperkingen in de handfunctie kunnen hebben.

Deel II: Arm en handfunctie bij baby's met UPBI – voorspelling en vroege detectie

Het tijdig herkennen van klinische signalen die wijzen op USCP is van belang voor vroege diagnose, prognostische informatie aan ouders en het opstarten van interventies in de eerste levensmaanden.

Hoofdstuk 3 betreft een scoping review naar vroege arm- en handbewegingen bij baby's van 0 tot 12 maanden (gecorrigeerde leeftijd) die voorspellend of kenmerkend zijn voor de ontwikkeling van USCP. Uit 5482 gevonden publicaties voldeden twaalf studies aan de inclusiecriteria. Drie categorieën in vroege arm- en handbewegingen werden er onderscheiden:

1. Spontane gegenereerde bewegingen van de bovenste extremiteiten,
2. Pre-reikgedrag,
3. Vaardigheden van de arm en hand.

In de geïnccludeerde studies werden de vroege arm- en handbewegingen gemeten door middel van observaties van video's, met behulp van accelerometers en door middel van 3-dimensionele bewegingsregistratie. In alle drie de categorieën en in alle meetmethoden werden asymmetrieën gevonden tussen de contralesionale en ipsilesionale arm. Bij een studie met 3-dimensionele bewegingsregistratie werd bij baby's die later USCP ontwikkelden, bilateraal een trager bewegingstempo gemeten. Asymmetrie in arm- en handbewegingen wordt duidelijker naarmate de baby's ouder worden. Enkele studies laten zien dat subtiele verschillen al vóór drie maanden zichtbaar kunnen zijn. 3-Dimensionele bewegingsregistratie en accelerometrie zouden ondersteunend kunnen zijn om voor het oog subtiele signalen nauwkeuriger vast te leggen en te beoordelen.

In **hoofdstuk 4** worden de voorspellende waarden van verschillende asymmetrie-indices vergeleken, namelijk die verkregen zijn uit conventionele MRI, diffusion tensor imaging (DTI) en de Hand Assessment for Infants (HAI). Er werden 45 baby's met UPBI (21 prematuur en 24 à terme geboren) vergeleken. MRI's werden uitgevoerd rond de à terme leeftijd (bij prematuren) of op ongeveer drie maanden postnataal (bij à terme geboren zuigelingen). De cortico-spinale banen werden geanalyseerd met T-2gewogen beeldvorming en DTI-tractografie (oppervlakte, diameter, en fractionele anisotropie). De HAI werd driemaal afgenomen: vóór 5 maanden, tussen 5 en 8 maanden en tussen 8 en 12 maanden gecorrigeerde leeftijd.

De resultaten toonden dat DTI-tractografie vóór de leeftijd van vijf maanden de hoogste voorspellende waarde heeft voor de latere ontwikkeling van USCP, zowel bij prematuur als à terme geboren zuigelingen. De voorspellende waarde van de HAI asymmetrie-index verschilde tussen groepen wanneer afgenomen bij baby's jonger dan vijf maanden. Deze was hoog bij à terme zuigelingen, maar niet voorspellend bij prematuren in de jongste leeftijdsgroep.

In **hoofdstuk 5** wordt de toepasbaarheid onderzocht van triaxiale accelerometrie als objectieve en niet-invasieve methode om asymmetrie in arm- en handactiviteit te meten bij baby's van 3 tot 12 maanden met een verhoogd risico op USCP. Vijftig baby's met UPBI droegen twee accelerometers (één aan elke pols) tijdens de HAI-speelsessie. De metingen werden verdeeld in drie leeftijdsgroepen: 3 tot 5 maanden, 5 tot 7,5 maanden en 7,5 tot 12 maanden. Binnen elke groep werd onderscheid gemaakt tussen baby's met en zonder asymmetrische handfunctie (op basis van in literatuur beschreven HAI cut-off waarden voorspellend voor USCP). In totaal werden 82 metingen geanalyseerd. Baby's met asymmetrische handfunctie vertoonden een significant hogere asymmetrie-index in de armactiviteit, terwijl de totale hoeveelheid aan beweging van beide armen niet verschilde. De HAI en accelerometrie meten verschillende aspecten van handfunctie en kunnen elkaar aanvullen. Accelerometrie meet de hoeveelheid in activiteit, en de HAI de kwaliteit van doelgerichte arm- en handfunctie.

Deel III: Ervaringen en therapiebehoeften van ouders in het eerste levensjaar

Wanneer een baby de diagnose UPBI krijgt, start voor ouders een periode van onzekerheid over de toekomstige ontwikkeling van hun baby. Binnen het Wilhelmina Kinderziekenhuis ontvangen deze ouders al vroeg begeleiding van een kinderfysiotherapeut of ergotherapeut, vaak nog voordat duidelijke klinische signalen van USCP zichtbaar zijn.

In **hoofdstuk 6** werden de ervaringen en therapiebehoeften van zestien ouders van elf baby's met UPBI onderzocht (waarvan acht baby's later USCP ontwikkelden en drie niet). Met semigestructureerde interviews en thematische analyse werd onderzocht hoe ouders kinderfysio- en ergotherapie in het eerste levensjaar ervoeren. De resultaten laten zien dat na een stressvolle en emotionele start met hun baby, ouders gevoelens van onzekerheid ervoeren. Het verkrijgen van prognostische informatie over motorische ontwikkeling werd als zeer waardevol beschouwd. Voeg of laat in het eerste levensjaar van hun baby waren ouders gemotiveerd om de ontwikkeling van hun kind actief te ondersteunen, maar gaven ook aan dat dit moeite kostte. Wanneer ouders terugkeken op deze inspanning, gaven ze aan dat het de moeite die zij in het oefenen staken de moeite waard was. Ouders waardeerden therapeuten die vanuit partnerschap werkten en hen actief begeleidten in het oefenen met hun kind. Het plezier van zowel ouder als kind tijdens het oefenen bleek belangrijk om overbelasting van het kind en schuldgevoelens te voorkomen. In de loop van het eerste levensjaar groeide het vertrouwen van ouders, zowel in de ontwikkeling van hun kind als in hun eigen rol als ouder hierin. Met name het behalen van ontwikkelingsmijlpalen maar ook bevestigende feedback van therapeuten droegen bij aan dit vertrouwen. Toch bleef bij sommige ouders een gevoel van onzekerheid bestaan over de toekomstige ontwikkeling van hun kind.

In **hoofdstuk 7** wordt een overzicht van de resultaten van de studies en de algemene discussie beschreven. De conclusie van dit proefschrift is dat kinderen met UPBI op latere leeftijd meer moeite hebben met bimanuele vaardigheden, zelfs wanneer ze geen USCP ontwikkelden. Met behulp van MRI is het mogelijk om baby's met een verhoogd risico op USCP al rond de 3,5-terme leeftijd te identificeren. Dit is ongeveer tien weken voordat met gevalideerde neuro motorische testen (o.a. de HAI) de klinische signalen van USCP vastgesteld kunnen worden. De HAI is een waardevolle test om asymmetrie in handfunctie te detecteren vanaf 3,5 maanden. Daarnaast lijkt accelerometrie een veelbelovende, objectieve en niet-invasieve manier om activiteit van de armen te monitoren, zowel in de kliniek als in de thuissituatie. Het vroeg identificeren van baby's met behulp van MRI, creëert mogelijkheden voor interventie in de eerste maanden van het leven, nog vóórdat klinische signalen van USCP ontstaan. Deze periode, vaak omschreven als een 'clinical silent' periode, biedt kansen voor vroege interventie voor de ondersteuning van de ontwikkeling van het kind en ten behoeve van ondersteuning van ouders.

AANBEVELINGEN

Klinische praktijk

- Kinderen met PAIS of PVHI zonder USCP kunnen verminderde bimanuele vaardigheden laten zien, welke geassocieerd is met een lagere totale IQ. Het is wenselijk om follow-up van zowel de motorische als cognitieve ontwikkeling voort te zetten tot op de schoolleeftijd. Therapie zou zich moeten richten op zowel motorische als cognitieve aspecten binnen dagelijkse activiteiten.
- Het is wenselijk om bij baby's met UPBI een gecombineerde benadering toe te passen met de General Movements Assessment (GMA) tussen 9 en 20 weken, de Hammersmith Infant Neurological Examination (HINE) en de Hand Assessment for Infants (HAI) op de leeftijd van 3,5 maanden om een zo volledig mogelijke beoordeling te krijgen van vroege klinische signalen van USCP.
- Het is wenselijk om een interventieprogramma in samenwerking met ouderexperts te ontwikkelen, gericht op ouders van baby's met UPBI en een hoog risico op USCP. Dit programma moet ouders ondersteunen in het stimuleren van de ontwikkeling van hun kind, hun vertrouwen in de toekomst van hun kind versterken en hun eigen zelfeffectiviteit vergroten.

Toekomstig onderzoek

- Het is wenselijk om bij kinderen met PAIS en PVHI, met en zonder de ontwikkeling van USCP, de relaties tussen cognitief functioneren (inclusief executieve functies) en moeilijkheden in het uitvoeren van dagelijkse activiteiten te onderzoeken.
- Het is wenselijk om te onderzoeken of 3-dimensionele bewegingsanalyse of draagbare sensortechnieken vroege klinische tekenen van USCP kunnen detecteren vóór de leeftijd van drie maanden.
- Het is wenselijk om te onderzoeken of accelerometrie bij baby's voorspellend is voor de ontwikkeling van USCP en om te valideren in de thuissituatie.
- Het is wenselijk om de effectiviteit van een vanuit co-creatie gecreëerd vroeg interventieprogramma te evalueren, zowel met uitkomsten gericht op kind als ouder. Dit interventieprogramma is gericht op het ondersteunen van vroege componenten van doelgerichte handfunctie en het versterken van ouderlijk vertrouwen en zelfeffectiviteit.

LEKENSAMENVATTING

Ergotherapie ondersteunt kinderen om dagelijkse activiteiten uit te voeren die voor hen belangrijk zijn en die bijdragen aan hun ontwikkeling. Voor baby's is spelen met hun handen een belangrijke manier om te leren en hierdoor ontwikkelen ze zowel motorische als cognitieve vaardigheden. De handvaardigheid geleerd op jonge leeftijd, vormt een belangrijke basis voor dagelijkse activiteiten later in het leven.

Sommige baby's ontwikkelen rond de geboorte een eenzijdige hersenbeschadiging, wat hen een hoger risico geeft op een aandoening die unilaterale spastische cerebrale parese (USCP) heet. Bij deze aandoening zorgt de verstoorde aansturing vanuit de hersenen ervoor dat de spierspanning aan één kant van het lichaam toeneemt. Hierdoor kan de handvaardigheid beperkt zijn.

In het eerste deel van het proefschrift hebben we bij kinderen van 6 tot 20 jaar met twee soorten van eenzijdige hersenbeschadiging, te weten perinataal arterieel ischemisch herseninfarct (PAIS) en periventriculair hemorrhagisch infarct (PVHI), onderzocht wat de vaardigheid is van beide handen samen. Kinderen met USCP hadden meer tijd nodig om kleine voorwerpen te hanteren ten opzichte van kinderen zonder USCP, onafhankelijk van het soort hersenschade. Bij kinderen zonder USCP bleek de groep met PAIS taken zoals bijvoorbeeld knippen en vouwen van papier meer precies uit te voeren dan de kinderen met USCP en de kinderen met PVHI zonder USCP. Bij kinderen zonder USCP lijkt dit samen te hangen met betere cognitieve functies.

Het tweede deel van het proefschrift gaat over het vroeg herkennen van signalen van USCP. Dit is belangrijk om tijdig therapie te starten, juist in de periode waarin de hersenen nog veel kunnen leren en aanpassen. Daarnaast is het belangrijk om ouders zo goed mogelijk te kunnen informeren. Om te onderzoeken waar we op kunnen letten in de arm- en handfunctie bij baby's hebben we een literatuuronderzoek gedaan. Hieruit blijkt dat voor de leeftijd van drie maanden, signalen van USCP heel subtiel aanwezig kunnen zijn. Vanaf de leeftijd van drie maanden, wordt het beter zichtbaar of een baby USCP ontwikkelt. Kenmerkend is de asymmetrie in arm- en handbewegingen, die duidelijker wordt naarmate de baby's ouder worden. Verder hebben we onderzocht of je met behulp van MRI-onderzoek en de Hand Assessment for Infants (HAI) al vroeg kunt voorspellen of een baby USCP krijgt. De MRI's werden uitgevoerd rond de uitgerekende leeftijd (bij te vroeg geboren kinderen) of op de leeftijd van drie maanden (bij op tijd geboren kinderen). Op de MRI werd de asymmetrie van de zenuwbanen die belangrijk zijn voor de aansturing van beweging onderzocht. Zowel de asymmetrie op de MRI als de asymmetrie gemeten met de HAI vanaf 3,5 maand oud, voorspellen of een baby USCP gaat ontwikkelen. Bij de jongste groep baby's voorspelt de asymmetrie van de MRI beter of een baby USCP ontwikkelt dan de asymmetrie op de HAI.

Ook hebben we in dit proefschrift onderzocht of je met behulp van bewegingssensoren (stappentellers) om de polsen, baby's met een asymmetrische handfunctie kunt onderscheiden van baby's met een symmetrische handfunctie. Baby's met asymmetrische handfunctie laten ook asymmetrie in hoeveelheid activiteit van de armen zien. De HAI en de bewegingssensoren meten verschillende aspecten van handfunctie en kunnen elkaar aanvullen.

Ouders van baby's met eenzijdige hersenschade ervaren in het eerste jaar veel onzekerheid en stress door de opname op de NICU, maar ook doordat er een hersenbeschadiging bij hun kind is vastgesteld. In het derde deel van het proefschrift hebben we ouders geïnterviewd en gevraagd wat hun ervaringen en hun behoeften zijn t.a.v kinderfysio- en ergotherapie in het eerste levensjaar. Ouders waarderen informatie over met name de toekomstige ontwikkeling en begeleiding van een therapeut met gelijkwaardigheid tussen ouder en therapeut. Samen oefenen met hun kind kan inspannend zijn, maar geeft ook voldoening. Het vertrouwen van ouders in zowel hun kind als in hun eigen rol groeit gedurende het eerste levensjaar. Hierbij speelt de vooruitgang in ontwikkeling van hun kind en de begeleiding van therapeuten een positieve rol. Enkele ouders geven aan dat doordat hun kind hersenschade heeft, ze nog steeds wat onzekerheid ervaren t.a.v. de toekomstige ontwikkeling van hun kind.

De aanbevelingen voor de toekomst ten aanzien van onderzoek en zorg richten zich op het volgen van de ontwikkeling van kinderen met eenzijdige hersenschade en het gecombineerd gebruik van, en het verder ontwikkelen van verschillende testen om zo vroeg mogelijk te kunnen vaststellen of een kind USCP krijgt. Daarnaast is het wenselijk om voor ouders een programma te ontwikkelen dat hen direct na de diagnose van eenzijdige hersenschade kan ondersteunen bij de ontwikkeling van hun kind.

.