

VU Research Portal

Measuring participation in children and young adults with visual impairment: the development of instruments

Elsman-Perlot, E.B.M.

2020

document version

Publisher's PDF, also known as Version of record

[Link to publication in VU Research Portal](#)

citation for published version (APA)

Elsman-Perlot, E. B. M. (2020). *Measuring participation in children and young adults with visual impairment: the development of instruments*.

General rights

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal ?

Take down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us providing details, and we will remove access to the work immediately and investigate your claim.

E-mail address:

vuresearchportal.ub@vu.nl

Chapter 14

Nederlandse samenvatting (Dutch summary)

Introductie

Wereldwijd hebben naar schatting 252.6 miljoen mensen een visuele beperking; dat wil zeggen dat ze slechtziend of blind zijn. Visuele beperkingen komen het meeste voor op oudere leeftijd. Naar schatting hebben in Nederland ongeveer 2600 kinderen tot 14 jaar een visuele beperking. De voornaamste oorzaken van visuele beperkingen bij Nederlandse kinderen zijn cerebrale visuele stoornissen (CVI), albinisme, nystagmus en congenitaal cataract.

Het hebben van een visuele beperking heeft een grote impact op iemands leven. Kinderen met een visuele beperking hebben vaak een achterstand in hun ontwikkeling. Daarnaast hebben kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking minder vrienden, kleinere sociale netwerken en voelen ze zich eenzamer. Hoewel kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking niet achterblijven qua opleiding ten opzichte van leeftijdsgenoten, hebben ze minder vaak een (betaalde) baan. Bovendien hebben kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking in het algemeen een lagere kwaliteit van leven, en hebben ze problemen met alledaagse activiteiten en maatschappelijke participatie. Kinderen en jongvolwassenen moeten nog vele jaren leven met de gevolgen van hun visuele beperking, aangezien er vaak geen genezing mogelijk is.

Het verbeteren van participatie en kwaliteit van leven zijn veelal de meest belangrijke doelstellingen in de behandeling of revalidatie van kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking. Expertisecentra voor blinden en slechtzienden bieden een breed scala aan diensten, variërend van het onderzoeken van visuele functies tot het geven van trainingen voor de uitvoering van dagelijkse activiteiten, psychosociale ondersteuning, begeleiding op school, werk en thuis en het voorschrijven van hulpmiddelen.

Bij het bieden van de juiste ondersteuning, is het belangrijk ook de wensen van de cliënt zelf in acht te nemen. In het geval van jonge kinderen gaat het hierbij veelal om de wensen van ouders/verzorgers, en vanaf een zekere leeftijd ook die van het kind zelf. Dit is in lijn met patiëntgerichte zorg, waar de laatste jaren veel aandacht voor is en waarbij de behoefte van een cliënt een prominente plek heeft in de keuze voor zorg. Het focussen op de behoefte van de cliënt is ook van belang voor gedeelde besluitvorming. Om patiëntgerichte zorg en gedeelde besluitvorming te bevorderen, kan gebruik worden gemaakt van patiënt-gerapporteerde uitkomsten, die de zelfervaren gezondheid van iemand weergeven, zonder interpretatie door een arts of professional. Voorbeelden van patiënt-gerapporteerde uitkomsten zijn participatie, kwaliteit van leven en visueel functioneren. Patiënt-gerapporteerde uitkomstmaten (PROMs) zijn vragenlijsten die gebruikt worden om patiënt-gerapporteerde uitkomsten te meten.

De expertisecentra voor blinden en slechtzienden gebruiken een PROM, de Participation and Activity Inventory (PAI), om de wensen en doelen van volwassenen met een visuele beperking in kaart te brengen, en een persoonlijk revalidatieplan op te stellen. Bovendien biedt de PAI inzicht in de effectiviteit van revalidatie. De inhoud van de PAI sluit echter niet aan op de activiteiten van kinderen van 0-17 jaar met een visuele beperking, en is daarom niet geschikt om hun de wensen

en doelen in kaart te brengen. Daarnaast bevinden jongvolwassenen van 18-25 jaar zich in een levensfase die gekarakteriseerd wordt door de overgang naar het volwassen leven, waardoor de inhoud van de PAI in mindere mate voor hun van toepassing is.

Doelstellingen

Het voornaamste doel van het werk dat gepresenteerd wordt in dit proefschrift is om PROMs te ontwikkelen om de wensen en doelen van kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking in kaart te brengen. Voor kinderen is dit de PAI for Children and Youth (PAI-CY) en voor jongvolwassenen de PAI for Young Adults (PAI-YA). Omdat kinderen een snelle ontwikkeling doormaken, zijn van de PAI-CY vier verschillende leeftijdsversies ontwikkeld: 0-2 jaar, 3-6 jaar, 7-12 jaar en 13-17 jaar. De PAI-YA is ontwikkeld voor de leeftijd 18-25 jaar. Het eerste deel van het proefschrift had tot doel het concept participatie voor kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking inzichtelijk te maken. Deze informatie heeft geleid tot de ontwikkeling van de PAI-CY en PAI-YA. Het tweede deel van het proefschrift had tot doel de meeteigenschappen, zogenaamde psychometrische eigenschappen, van de PROMs die in dit proefschrift ontwikkeld en gebruikt werden te onderzoeken.

Impact van een visuele beperking

Hoewel de impact van een visuele beperking op diverse specifieke levensaspecten van kinderen en jongvolwassenen bekend is, is er minder onderzoek gedaan naar de impact op het gehele leven van kinderen en jongvolwassenen. In **Hoofdstuk 2 en 3** is een conceptueel model ontwikkeld dat weergeeft welke levensaspecten worden beïnvloed door het hebben van een visuele beperking als respectievelijk kind en jongvolwassene. Hiervoor zijn diverse kwalitatieve onderzoeksmethoden gebruikt bij ouders van kinderen met een visuele beperking, kinderen en jongvolwassenen met een visuele beperking zelf en professionals van de expertisecentra voor blinden en slechtzienenden, waaronder brainstormsessies, interviews, focusgroep discussies en concept-mapping workshops. Voor kinderen zijn de hierboven beschreven levensgroepen gehanteerd: 0-2 jaar, 3-6 jaar, 7-12 jaar en 13-17 jaar. Het hebben van een visuele beperking bleek zowel sensorische ontwikkeling als fysiek, psychologisch en sociaal welzijn te beïnvloeden. Externe factoren zoals onderwijs en de invloed van ouders kunnen participatie bevorderen of belemmeren. Voor de jongste kinderen (0-2 jaar) was hechtingsproblematiek een belangrijk thema, terwijl mobiliteit en zelfstandigheid veelal genoemd werden voor kinderen van 3-6 jaar. Voor kinderen van 7-12 jaar werden algemene ontwikkeling en toenemend zelfbewustzijn genoemd door ouders en professionals van de expertisecentra voor blinden en slechtzienenden, terwijl kinderen zelf sociale isolatie en afhankelijkheid van anderen benoemden. Ook voor kinderen van 13-17 jaar verschilden de perceptie van volwassenen met die van kinderen. Kinderen benoemden het verlangen naar onafhankelijkheid en de onzekerheid over de toekomst. Deze thema's werden ook benoemd door ouders en professionals, maar hadden een andere invalshoek. Terwijl professionals benoemden dat jongeren hun beperkingen niet erkennen, benoemden jongeren zelf dat ze dikwijls overweldigd worden als ze nadenken over hun toekomst. Voor jongvolwassenen van 18-25 jaar waren opleiding, werk, dagelijkse activiteiten, sociale vaardigheden en relaties belangrijke

thema's. De verschillen tussen de percepties van jongvolwassenen en professionals waren minder uitgesproken dan in de studie naar kinderen, hoewel professionals over het geheel meer belang lijken te hechten aan de diverse thema's dan jongvolwassenen, met uitzondering van het thema vrijetijd. Uit de studies in hoofdstuk 2 en 3 kwam naar voren dat professionals van expertisecentra voor blinden en slechtzienden alle levensaspecten in acht moeten nemen als ze de wensen en doelen van kinderen, hun ouders en jongvolwassenen in kaart brengen. Daarnaast moet er aandacht zijn voor de verschillen in perceptie tussen kinderen en volwassenen. Derhalve is geconcludeerd dat de expertisecentra voor blinden en slechtzienden baat zouden hebben bij nieuwe PROMs, gebaseerd op de conceptuele modellen, om de wensen en doelen van kinderen en jongvolwassenen te identificeren.

Kwaliteit van leven van jongvolwassenen

Mensen met een visuele beperking ervaren doorgaans een lagere kwaliteit van leven dan de algemene populatie, maar deze bevinding is voornamelijk gebaseerd op studies uitgevoerd onder oudere volwassenen. In **Hoofdstuk 4** is de kwaliteit van leven en participatie van 172 jongvolwassenen van 18-25 jaar met een visuele beperking vergeleken met data uit de literatuur van de algemene Nederlandse populatie. Daarnaast is de samenhang tussen de ernst van de visuele beperking met kwaliteit van leven en participatie onderzocht. Hoewel jongvolwassenen met een visuele beperking significant slechter scoorden op kwaliteit van leven en participatie dan de algemene Nederlandse populatie, heeft een visuele beperking slechts een matig effect op enkele domeinen van kwaliteit van leven, de zogenaamde fysieke rollimitatie en vitaliteit. Er werden wel grote effecten gevonden voor de meeste domeinen van participatie. Daarnaast hing een ernstigere visuele beperking samen met slechter fysiek functioneren en een lagere visusgerelateerde kwaliteit van leven. De resultaten van dit onderzoek kunnen worden gebruikt om revalidatieprogramma's aan te passen, zodat jongvolwassenen met een visuele beperking beter kunnen worden ondersteund.

Systematische review

Hoofdstuk 5 geeft een actueel en systematisch literatuur overzicht van de effectiviteit van interventies gericht op het verbeteren van functioneren, participatie en kwaliteit van leven van kinderen met een visuele beperking. In totaal konden 66 studies worden geïncludeerd, waarvan het merendeel focust op fysiek functioneren, mondhygiëne en psychologische uitkomsten. De resultaten laten zien dat bepaalde interventies, zoals fysieke trainingen, sportkampen, het voorschrijven van hulpmiddelen en mondhygiëneprogramma's effectief kunnen zijn in het verbeteren van het functioneren of elementen van participatie en kwaliteit van leven. De effectiviteit van vele andere interventies, die bijvoorbeeld momenteel aangeboden worden door de expertisecentra voor blinden en slechtzienden, blijft echter onduidelijk. De schaarste van het bewijs werd medeveroorzaakt door een tekort aan studies van hoge kwaliteit, die goed ontworpen waren met een voldoende steekproefgrootte en die de uitkomsten goed rapporteerden. Het vergelijken van de resultaten tussen studies werd belemmerd door het gebruik van vele uitkomstmaten.

Pilotstudie

Met behulp van de conceptuele modellen uit hoofdstuk 2 en 3 zijn vier leeftijdsspecifieke PAI-CYs (0-2 jaar, 3-6 jaar, 7-12 jaar en 13-17 jaar) en één PAI-YA (18-25 jaar) ontwikkeld. In **Hoofdstuk 6** is in een pilotstudie de haalbaarheid en acceptatie van de PAI-CY en PAI-YA tijdens de reguliere intakeprocedure bij de expertisecentra voor blinden en slechtzienden onderzocht. Hiervoor werden zowel de cliënten, als de professionals die betrokken waren bij de intake ondervraagd. Het merendeel van de ouders (meer dan 85%) was tevreden over diverse aspecten van de PAI-CY, zoals de invulduur, de relevantie van de inhoud van de vragenlijst en de begrijpelijkheid van de vragen. Alle kinderen en jongvolwassenen waren ook tevreden over de diverse aspecten van de PAI-CY en PAI-YA, met uitzondering van de invulduur. Professionals van de expertisecentra voor blinden en slechtzienden waren minder positief, met name over het vermogen van de vragenlijsten om de revalidatiedoelen te verduidelijken. De achterliggende oorzaak hiervan is dat niet elke vraag die als moeilijk wordt beoordeeld ook noodzakelijk een revalidatiedoel is. Op basis van de resultaten werden er diverse aanpassingen gedaan aan de PAI-CY en PAI-YA. De belangrijkste verandering was de toevoeging van een open vraag na elk domein om de revalidatiedoelen inzichtelijk te maken.

Psychometrische eigenschappen

Een van de hoofdthema's van dit proefschrift is het evalueren van de psychometrische eigenschappen van de PROMs die in dit proefschrift werden ontwikkeld en gebruikt. Om de psychometrische eigenschappen te onderzoeken, zijn methoden uit de klassieke testtheorie en de item responstheorie gebruikt. Daarnaast is netwerkanalyse toegepast. Het doel was om vragenlijsten te ontwikkelen die valide, betrouwbaar en toepasbaar zijn. Hierbij wordt aangenomen dat items (vragen) in een vragenlijst een onderliggend of latent construct meten. Participatie wordt bijvoorbeeld gezien als een latent construct, omdat het niet direct kan worden gemeten, wat bijvoorbeeld bij lengte, gewicht of bloeddruk wel het geval is.

In **Hoofdstuk 7** is een cross-culturele validatie gedaan van de Functional Vision Questionnaire for Children and Young People (FVQ_CYP). Deze vragenlijst is ontwikkeld in Engeland, en is gebruikt als vergelijkingsinstrument in de validatiestudies van de PAI-CY. Derhalve moest de Nederlandse versie van de FVQ_CYP (de FVQ_CYP_NL) eerst cross-cultureel gevalideerd worden. Het item responsmodel dat in de originele validatie van de FVQ_CYP was gebruikt, bleek niet te passen bij de Nederlandse data. Daarom zijn de psychometrische eigenschappen van de FVQ_CYP_NL met een ander item responsmodel onderzocht. Na het verwijderen van 12 items en het samenvoegen van de antwoordopties 'moeilijk' en 'erg moeilijk of onmogelijk' had de FVQ_CYP_NL bestaande uit 24 items hoge precisie en een brede dekking van items voor het meten van functionele visus van kinderen. Daarnaast was de FVQ_CYP_NL in staat om onderscheid te maken tussen kinderen met een ernstige visuele beperking of blindheid en kinderen met een matige of milde visuele beperking.

In **Hoofdstuk 8 en 9** zijn de psychometrische eigenschappen van de PROMs die alleen door ouders worden ingevuld onderzocht, respectievelijk de PAI-CY 0-2 jaar en 3-6 jaar. Hierbij is gebruik gemaakt van een combinatie van klassieke testtheorie en item responsie theorie. In de PAI-CY 0-2 jaar zijn 4 items verwijderd en voor sommige items zijn enkele antwoordcategorieën samengevoegd. De resterende 27 items laten acceptabele psychometrische eigenschappen zien. Met de PAI-CY 0-2 jaar was het mogelijk om onderscheid te maken tussen kinderen met en zonder andere aandoeningen en met oplopende ernst in visuele beperking. Echter, het is in de toekomst nodig om de psychometrische eigenschappen van de PAI-CY 0-2 jaar te verifiëren in een grotere populatie. De PAI-CY 3-6 jaar bestaat uiteindelijk uit 40 items, hoewel er 35 meetellen in de scoring van de vragenlijst. De vijf items die niet mee tellen in de scoring waren belangrijk voor de inhoudsvaliditeit; volgens professionals van expertisecentra voor blinden en slechtzienden was het belang van deze items groot, hoewel ze niet pasten bij het gebruikte item responsmodel. Na het samenvoegen van de antwoordopties 'erg moeilijk' en 'onmogelijk', hadden de 35 items solide psychometrische eigenschappen om de doelen van kinderen met een visuele beperking te identificeren middels proxyrapportage (door ouders/verzorgers). Ook de PAI-CY 3-6 jaar kon onderscheid maken tussen kinderen met verschillende mate van visuele beperking en met of zonder andere aandoeningen.

De PAI-CY 7-12 jaar, die door kinderen zelf en hun ouders/verzorgers wordt ingevuld, is onderzocht in **Hoofdstuk 10**. Hiervoor is netwerkanalyse gebruikt, want er kon niet worden aangetoond dat de items één latent construct beschreven, de belangrijkste voorwaarde voor het gebruiken van een item responsmodel. Voorafgaand aan de netwerkanalyse zijn enkele basale psychometrische eigenschappen onderzocht, zoals de interne consistentie van de items, test-hertest betrouwbaarheid van de items en de concordantie tussen de antwoorden van kinderen en ouders. Op basis hiervan werden 8 items verwijderd. Er werd een netwerk voor zowel de kinderen als de ouders ontwikkeld, samen met visualisaties van de gedeelde en differentiële verbindingen. De netwerkstructuur van de kinderen en ouders verschilden. Voor kinderen ontstonden er verbindingen tussen items over sociale contacten en school, terwijl voor ouders verbindingen tussen items op het gebied van mobiliteit, vrijetijd, acceptatie, zelfredzaamheid en communicatie de overhand hadden. Dit laat zien dat kinderen participatie anders definiëren dan ouders.

De psychometrische eigenschappen van de PAI-CY 13-17 jaar, ook bestaande uit een versie voor kinderen en een versie voor ouders/verzorgers, zijn onderzocht in **Hoofdstuk 11** middels klassieke testtheorie. Drie items zijn verwijderd, resulterend in een vragenlijst met 55 items. De antwoordopties 'erg moeilijk' en 'onmogelijk' zijn samengevoegd. De PAI-CY 13-17 jaar had aanvaardbare basale psychometrische eigenschappen en kon onderscheid maken tussen deelnemers met en zonder andere aandoeningen. Daarnaast was er een trend waarneembaar van slechtere scores voor toenemende mate van visuele beperking. Er is echter aanvullend onderzoek nodig met een grotere populatie, zodat ook item responsie theorie kan worden gebruikt waardoor de PAI-CY 13-17 jaar hogere precisie krijgt en gebruiksvriendelijker wordt.

De psychometrische eigenschappen van de PAI-YA voor jongvolwassenen van 18-25 jaar zijn onderzocht in **Hoofdstuk 12**. Hiervoor is gebruik gemaakt van een combinatie van klassieke testtheorie en item responstheorie. De oorspronkelijke vragenlijst had 141 items, maar de meesten werden verwijderd in diverse analyseronden. Uiteindelijk bleven er 64 items over, waarvan er 60 worden meegeteld in de scoring. De vier items die niet meetellen in de scoring waren belangrijk voor het kunnen identificeren van alle revalidatiebehoeften, en als zodanig van belang voor de inhoudsvaliditeit van de PAI-YA.

De studies in hoofdstuk 8-12 laten zien dat de PAI-CY en PAI-YA aanvaardbare psychometrische eigenschappen hebben. De PAI-CY en PAI-YA kunnen worden gebruikt om de wensen en doelen van kinderen, hun ouders en van jongvolwassenen met een visuele beperking te identificeren binnen de expertisecentra voor blinden en slechtzienden. Concluderend maken de uitkomsten van dit proefschrift het mogelijk om patiëntgerichte zorg te leveren, waarmee beter wordt ingespeeld op de wensen en doelen van de cliënt zelf. Daarnaast kan het gebruik van de PAI-CY en de PAI-YA bijdragen aan gedeelde besluitvorming. Bovendien kunnen de PAI-CY en PAI-YA gebruikt worden als uitkomstinstrument in onderzoek, bijvoorbeeld om de effectiviteit van een interventie aan te tonen. Om de implementatie en het gebruik van de PAI-CY en de PAI-YA te bevorderen, is naast dit proefschrift een Nederlandstalige handleiding ontwikkeld waarin ook de definitieve vragenlijsten zijn opgenomen. Deze is als addendum in een apart boekje aan dit proefschrift toegevoegd. Omdat er al veel belangstelling voor het gebruik van de PAI-CY en PAI-YA in het buitenland is, is eveneens een Engelstalige handleiding ontwikkeld, en zijn de PAI-CY en PAI-YA naar het Engels vertaald. Alvorens de PAI-CY en PAI-YA in andere landen te kunnen gebruiken, zullen de vertaalde vragenlijsten eerst opnieuw moeten worden gevalideerd.

