

# VU Research Portal

## Coping with Pediatric Chronic Illness

Scholten, L.

2013

### **document version**

Publisher's PDF, also known as Version of record

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

### **citation for published version (APA)**

Scholten, L. (2013). *Coping with Pediatric Chronic Illness: Efficacy, Moderators and Mediators of a Psychosocial Group Intervention for Children and Parents*. [PhD-Thesis – Research external, graduation internal, Vrije Universiteit Amsterdam].

### **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](mailto:vuresearchportal.ub@vu.nl)



# Chapter 9

**Summary in Dutch - Samenvatting**



In Nederland groeien naar schatting 500.000 kinderen op met een chronische ziekte (14%). Voorbeelden van chronische ziektes zijn astma, diabetes, reuma, de ziekte van Crohn, maar ook meer zeldzame chronische aandoeningen zoals cystic fibrosis. Door de vooruitgang in de medische behandelmethoden kunnen steeds meer van deze kinderen opgroeien tot volwassenen. Een belangrijk gevolg van deze positieve ontwikkeling is dat de gevolgen van ziekte op de kinderleeftijd voor de psychosociale ontwikkeling aandacht behoeven. Kinderen met een chronische ziekte krijgen veelal te maken met onzekerheid over de toekomst, frequent ziekenhuisbezoek, medicamenteuze behandeling, vermoeidheid, beperkingen in het meedoen aan sociale en/of sportieve activiteiten en schoolverzuim. Deze aspecten hebben een grote invloed op het functioneren van kinderen in het dagelijks leven. Om gezinnen te ondersteunen in het omgaan met de psychologische en sociale aspecten van een chronische ziekte kan hulpverlening gewenst zijn. Interventies gericht op vaardigheden die kunnen helpen bij het omgaan met een chronische ziekte (copingvaardigheden) zijn van cruciaal belang om de veerkracht van kinderen te vergroten en mogelijke negatieve gevolgen, zoals sociale problemen, leerproblemen of de ontwikkeling van psychopathologie te voorkomen.

Het overkoepelende doel van de studies beschreven in dit proefschrift was om meer inzicht te krijgen in hoe het psychosociale functioneren van kinderen met een chronische ziekte positief kan worden beïnvloed. In dit proefschrift worden de resultaten beschreven van een gerandomiseerde studie (RCT) naar de effectiviteit van een psychosociale groepsinterventie voor kinderen en jongeren met verschillende chronische ziekten en hun ouders, genaamd 'Op Koers'. 'Op Koers' richt zich op het aanleren van ziektegerelateerde copingvaardigheden. Voor kinderen en jongeren worden 6 wekelijkse groepsbijeenkomsten van 90 minuten aangeboden. Deelnemers leren vaardigheden die hen helpen positief te denken, te ontspannen bij medische ingrepen en stress en open te communiceren over hun ziekte. Omdat de effecten van dergelijke interventies vaak beperkt en kortstondig zijn, werd naast de kindcursus een aanvullende oudercursus ontwikkeld waarin ouders leren hoe ze hun kind kunnen ondersteunen in het omgaan met de ziekte in het dagelijks leven.

Specifieke onderzoeksvragen voor de deelstudies beschreven in dit proefschrift waren: (1) welke psychosociale problemen rapporteren kinderen met een chronische ziekte die zich aanmelden voor een groepsinterventie, en welke risico- en beschermende factoren hangen samen met deze problemen? (*Waarom interveniëren?*), (2) is de 'Op Koers' interventie effectief in het verminderen van psychosociale problemen en in welke mate versterkt het betrekken van ouders bij de interventie het effect? (*Werk het?*), (3) zijn er risico- en/of beschermende factoren die het interventie effect kunnen versterken of juist verzwakken? (*Voor wie werkt het het best?*), (4) zijn verbeteringen in het toepassen van ziekte gerelateerde copingvaardigheden en in ouder-kind interacties de mechanismen waardoor de 'Op Koers' interventie leidt tot verbeteringen het psychosociaal functioneren (*Waardoor werkt het?*), en (5) is het uitvoeren van de 'Op



Koers' interventie praktisch haalbaar en zijn de gebruikers tevreden met de interventie? (Kan het geïmplementeerd worden in de klinische praktijk?).

## 1. Psychosociale problemen en mogelijke risico- en beschermende factoren: Waarom interveniëren?

Het eerste doel van dit onderzoek was om te bepalen hoe veel en ook wat voor soort psychosociale problemen kinderen die zich aanmelden voor 'Op Koers' ervaren in vergelijking met gezonde kinderen en in vergelijking met kinderen met chronische aandoeningen in het algemeen. Daarnaast werden verschillende risico en beschermende factoren onderzocht die in bestaande transactionele modellen worden verondersteld samen te hangen met aanpassing aan een chronische ziekte (Wallander & Varni, 1998). Deze factoren betroffen: ziektefactoren (ernst van de ziekte), coping factoren (het gebruik van betrokken en/of vermijdende coping strategieën), intrapersoonlijke factoren (gevoel van eigenwaarde) en ouderfactoren (opvoedingsstress en de veiligheid van de ouder-kind relatie). De uitkomstmaat, psychosociaal functioneren van de kinderen, werd gemeten middels een gestandaardiseerde vragenlijst die internaliserende en externaliserende gedragsproblemen in kaart brengt (Child Behavior Checklist: ouderrapportage/Youth Self Report: kindrapportage > 11 jaar). Voor deze cross-sectionele studie, die beschreven is in **Hoofdstuk 2**, werd de eerste meting van de RCT gebruikt ( $N = 194$  kinderen in de leeftijd van 8 tot 18 jaar en hun primaire opvoeder).

Uit de resultaten kwam naar voren dat ouders en kinderen significant meer internaliserende gedragsproblemen rapporteerden dan kinderen uit de algemene bevolking ( $d = 1.04$  en  $.62$ ). Wanneer de lichaamsgerelateerde klachten (bijvoorbeeld hoofdpijn, buikpijn) werden weggelaten uit de schaal voor internaliserende problemen rapporteerden ouders nog steeds meer problemen dan de norm ( $d = .51$ ), terwijl kindgerapporteerde problemen vergelijkbaar waren met de norm ( $d = -.06$ ). Ouders rapporteerden meer externaliserende problemen bij hun kind ( $d = .25$ ), maar kinderen rapporteerden daarentegen minder externaliserende problemen dan hun gezonde leeftijdsgenoten ( $d = -.25$ ). Het percentage kinderen dat in de (sub) klinische range scoorde was 48%, gebaseerd op ouderrapportage, en 15% gebaseerd op zelfrapportage wat betreft internaliserende problemen. Het percentage van externaliserende problemen binnen de (sub)klinische range was 19%, gebaseerd op ouderrapportage, en 4% gebaseerd op zelfrapportage. Over het algemeen waren de gevonden effecten op de verschillende schalen vergelijkbaar met die van kinderen uit voorgaande studies naar gedragsproblemen bij kinderen met chronische aandoeningen (Pinquart & Shen, 2011). De resultaten onderstrepen het belang van het gebruik van meerdere informanten (kind en ouder) en voorzichtigheid bij het interpreteren van internaliserende probleemschalen waar items over lichaamsgerelateerde klachten in voor komen (Perrin, Stein & Drotar, 1991). Daarnaast is het belangrijk om te vermelden

dat onze steekproef geen representatieve afspiegeling was van de totale groep kinderen met een chronische ziekte, aangezien het een groep betreft die zich aan heeft gemeld voor een psychosociale interventie.

De resultaten aangaande de risico en beschermende factoren lieten zien dat het gebruik van vermijdende copingstrategieën, een lager gevoel van eigenwaarde, onveiligheid van de ouder-kind relatie en opvoedingstress allemaal uniek geassocieerd waren met meer psychosociale problemen. Echter, de associaties verschilden voor internaliserende en externaliserende problemen en voor kind- of ouderrapportage. Het gebruik van vermijdende coping droeg uniek bij in het verklaren van de variatie in kindgerapporteerde internaliserende en externaliserende problemen. Een lager gevoel van eigenwaarde was uniek geassocieerd met meer internaliserende problemen (zowel door kind als ouder gerapporteerd). Een onveilige ouder-kind relatie droeg uniek bij aan de verklaring van kindgerapporteerde externaliserende problemen, en meer opvoedingstress was uniek geassocieerd met meer oudergerapporteerde gedragsproblemen. Er werden geen verbanden gevonden tussen ziekte factoren (soort diagnose, duur en beloop van de ziekte) of socio-demografische kenmerken en gedragsproblemen, met uitzondering van een zwak verband tussen de ernst van de ziekte en internaliserende problemen.

Samengevat gaven de bevindingen van deze deelstudie aan dat gedragsproblemen van kinderen met een chronische ziekte moeten worden beschouwd als uitkomst van een dynamisch proces, waarin bijkomende risico- en beschermende factoren in samenhang een rol spelen. Bovendien ondersteunen de resultaten het idee dat interventies voor kinderen met een chronische ziekte gericht moeten zijn op zowel kinderen als hun ouders en zich inhoudelijk moeten richten op copingvaardigheden en het versterken van het gevoel van eigenwaarde. Tot slot, het gebrek aan samenhang tussen psychosociale problemen en ziektefactoren onderstreept een ziektegenerieke benadering van een pediatrisch psychosociaal interventieprogramma.

## 2. Effectiviteit van de 'Op Koers' interventie: Werkt het?

Het tweede en belangrijkste doel van de studie was om de effectiviteit van de 'Op Koers' interventie te onderzoeken, en om het effect van de aanvullende oudercursus te testen. Voorgaande studies gaven aan dat aanpassing aan de chronische ziekte verbeterd kan worden door kinderen actieve copingvaardigheden aan te leren met behulp van cognitief gedragstherapeutische technieken (Barlow & Ellard, 2004; Beale, 2006; Plante et al., 2001; Thompson et al., 2011). Ook zijn er aanwijzingen dat het betrekken van ouders bij de interventie mogelijk het effect vergroot (o.a., Beale, 2006; Eccleston et al., 2012; Thompson et al., 2011). Er zijn echter weinig ouder-kind interventies die grondig geëvalueerd zijn en de bestaande interventies zijn ontwikkeld voor kinderen met specifieke diagnoses (astma, diabetes), terwijl er geen bewijzen zijn dat een ziekte specifieke aanpak vereist is.



Om de effectiviteit van 'Op Koers' te onderzoeken, werd een onderzoeksprotocol ontwikkeld conform het CONSORT Statement (Schulz et al., 2010) (**Hoofdstuk 3**). Er werden 1143 gezinnen aangeschreven in drie academische en vier perifere ziekenhuizen en in twee scholen voor langdurig zieke kinderen in Nederland. In totaal gaven 218 (19%) gezinnen zich op voor de studie, waarvan 24 gezinnen afvielen op basis van de exclusiecriteria of door logistieke problemen. De 194 kinderen die uiteindelijk deelnamen waren in de leeftijd van 8 tot 18 jaar met een gemiddelde van 12 jaar. Er deden precies evenveel jongens als meisjes mee. Kinderen werden gerandomiseerd over 3 condities: 1) een groep waarbij alleen het kind deelnam aan de cursus (kind interventie), 2) een kindcursus met een parallelle oudercursus (ouder-kind interventie), 3) een wachtlijst controle groep. Primaire uitkomstmaten waren ouder- en kindgerapporteerde internaliserende en externaliserende problemen; secundaire uitkomsten waren ziekte-gerelateerde copingvaardigheden (informatie zoeken, ontspanning, sociale competentie, therapietrouw en positief denken). Uitkomstmaten werden gemeten middels online vragenlijsten voorafgaand aan de interventie, en 6 maanden en 12 maanden na de interventie.

De resultaten die zijn beschreven in **Hoofdstuk 4** laten zien dat, in vergelijking met de wachtlijstgroep, de 'Op Koers' interventie een positief effect had op de afname in oudergerapporteerde internaliserende problemen, kindgerapporteerde externaliserende problemen, informatie zoeken, sociale competentie en positief denken. Het aanvullende effect van de ouder component werd gevonden op oudergerapporteerde internaliserende problemen, kindgerapporteerde externaliserende problemen, informatie zoeken en sociale competentie. Deelname van ouders aan de interventie versterkte met name de effecten op de lange termijn. Hoewel de interventie-effecten overeenkomstig zijn met die van vergelijkbare interventies (Hampson et al., 2000; Nguyen et al., 2011) waren de effect groottes klein tot matig ( $d = .22 - .42$ ). Daarnaast zijn er geen interventie effecten op kindgerapporteerde internaliserende problemen, oudergerapporteerde externaliserende problemen, ontspanning en therapietrouw gevonden. Bij de interpretatie van de effecten van de interventiegroepen ten opzichte van de wachtlijstgroep dient in aanmerking genomen te worden dat 74% van de gezinnen uit de wachtlijstgroep alternatieve hulpverlening heeft gezocht gedurende de interventieperiode, waardoor een deel van de effectiviteit van 'Op Koers' kan zijn gemaskeerd. Hoewel het onduidelijk is wat deze hulpverlening precies voor invloed heeft gehad op de afname van problemen in de wachtlijstgroep, geeft deze verrassende bevinding in de wachtlijstgroep wel aan dat psychosociale hulp voor deze gezinnen gewenst is.

Concluderend ondersteunt dit onderzoek de effectiviteit van de groepscursus 'Op Koers' voor kinderen met chronische een chronische ziekte en hun ouders. Het programma voor ouders versterkt het effect van de kindcursus, met name op de lange termijn.

### 3. Moderatoren van het interventie effect: Voor wie werkt het het best?

Het derde doel van de studie was om te onderzoeken of ziekte-, kind- en ouderfactoren het effect van de 'Op Koers' interventie modereren. Omdat het onrealistisch is te veronderstellen dat alle kinderen evenveel van een interventie profiteren (La Greca, Silverman, & Lochman, 2009) is het belangrijk om te weten voor welke kinderen de interventie beter werkt dan voor anderen en welk protocol (kind versus ouder-kind) voor welk kind het beste werkt. Hierover is nog weinig bekend in de pediatrisch psychologische literatuur, terwijl het juist steeds meer wordt aangeraden om interventies toe te spitsen op individuele behoeften (Simon & Perlis, 2010; La Greca, Silverman, & Lochman, 2009; Scott & Dadds, 2009; Weisz et al., 2012).

In **Hoofdstuk 4** werden eventuele moderatie van ziektefactoren getest en werd geen bewijs gevonden dat 'Op Koers' beter of minder goed werkt voor kinderen met verschillende diagnoses of verschillende niveaus van de ernst van de ziekte. Dit is belangrijke informatie, omdat hieruit geen contra-indicatie naar voren komt voor de ziektegenerieke aanpak van de 'Op Koers' interventie.

In **Hoofdstuk 5** werd onderzocht of leeftijd, sekse, gedragsproblemen bij de start van de interventie en significante risico- en beschermende factoren uit hoofdstuk 2 (vermijdende coping, gevoel van eigenwaarde, de veiligheid van de ouder-kind relatie en opvoedingsstress) als moderatoren optraden van het interventie effect. De resultaten wezen uit dat de ouder-kind interventie effectiever was dan de kind-interventie voor kinderen die voorafgaand aan de interventie meer gebruik maakten van een vermijdende copingstijl en voor kinderen met een lagere eigenwaarde. Daarnaast vonden we dat interventie effecten niet verschilden voor jongens of meisjes, en niet voor kinderen met verschillende leeftijden, verschillende mate van gedragsproblemen bij de start van de interventie, en voor verschillende mate van opvoedingsstress van de ouders van deze kinderen. Deze moderatie effecten waren vergelijkbaar met voorgaande studies die lieten zien dat de grootste interventie effecten behaald kunnen worden bij kinderen die het meest kunnen profiteren van een interventie (o.a., Hautmann et al., 2009). De ouder-kind interventie was effectiever voor ouder-kind paren waarbij de relatie als veilig werd ervaren.

Er werd geconcludeerd dat kinderen die meer 'at risk' zijn voor de factoren waarop de interventie gericht is, meer profiteren van de interventie en dat voor deze kinderen het nog belangrijker is om ouders te betrekken. Echter, de resultaten suggereren ook dat een onveilige ouder-kind relatie nadelig is voor de effectiviteit van participatie in de 'Op Koers' ouder-kind interventie. Voor ouder-kindparen waarbij er sprake is van een onveilige relatie lijkt de 'Op Koers' interventie onvoldoende en is er meer nodig op het gebied van de ouder-kind relatie.





#### 4. Mediatoren van het interventie effect: Waardoor werkt het?

De vierde deelvraag van de studie richtte zich op de vraag of ziekte-gerelateerde copingvaardigheden en positieve ouder-kind interacties de mechanismen zijn waardoor de effecten van 'Op Koers' op het psychosociale functioneren van de kinderen worden bereikt. Hoewel vele onderzoekers het belang van het identificeren van onderliggende mechanismen van interventie benadrukken, zijn mediatie studies schaars in de pediatrische literatuur (Kraemer et al., 2008; La Greca et al., 2009). In **Hoofdstuk 6** worden de resultaten van de mediatie analyses beschreven. De mediators die werden getest waren kindgerapporteerde copingvaardigheden (informatie zoeken, positief denken en sociale competentie), het gebruik van copingvaardigheden gerapporteerd door de ouders en observaties van ouder-kind interacties (middels een semi-gestructureerde observatietaak).

De resultaten lieten zien dat de effecten van 'Op Koers' op de afname in gedragsproblemen werden gemedieerd door een toename in het gebruik van ziekte-gerelateerde copingvaardigheden. In gezinnen waarbij zowel het kind als de ouder participeerden in 'Op Koers' nam de sociale competentie toe, wat resulteerde in een sterkere afname in internaliserende en externaliserende gedragsproblemen. Indirecte effecten werden ook gevonden via een toename in informatie zoeken en positief denken, maar hierbij werd geen significante mediatie gevonden. Positieve ouder-kind interacties waren gerelateerd aan een afname in gedragsproblemen, maar verklaarden niet het aandeel van het betrekken van ouders in de interventie. Effecten van copingvaardigheden op de afname van gedragsproblemen waren ook sterker in de ouder-kind interventie groep, wat suggereert dat ouders belangrijk zijn bij het benutten van de copingvaardigheden in het dagelijks leven.

Concluderend benadrukken de resultaten van deze deelstudie dat een toename in het gebruik van ziekte-gerelateerde copingvaardigheden en het betrekken van ouders bij de interventie belangrijke werkende mechanismen zijn van 'Op Koers'.

#### 5. Praktische toepasbaarheid: Kan het geïmplementeerd worden?

Het vijfde en laatste doel van de studie was om meer inzicht te krijgen in hoe 'Op Koers' geïmplementeerd kan worden in de klinische praktijk. Helaas is de implementatie van interventies, ook al is effectiviteit aangetoond, vaak niet geheel succesvol (Drotar, 2010; Spirito & Kazak, 2006; Stark, 2010). Dit is problematisch, omdat uit eerder onderzoek blijkt dat slecht uitgevoerde en geïmplementeerde interventies minder effectief werken (Berwick, 2003).

In **Hoofdstuk 7** hebben we verschillende uitkomsten onderzocht die mogelijk aanwijzingen kunnen geven voor implementatie. Ten eerste hebben we de werving, het aanmeldproces, de uitval tijdens de interventie en logistieke problemen tijdens de uitvoering van 'Op Koers' tijdens de RCT onderzocht. Ten tweede hebben we onderzocht of de interventiedoelen aansloten bij de ondersteuningsbehoeften van de gezinnen die

zich hadden aangemeld. Ten slotte hebben we de tevredenheid van kinderen, ouders en professionals in kaart gebracht.

De resultaten van deze evaluatiestudie toonde aan dat het aanmeldpercentage 19% betrof. Uitval was zeer gering (7% in de kind-interventie, en 4% in de ouder-kind interventie). Daarnaast bleek er een aanzienlijke overlap in de interventiedoelen en de ondersteuningsbehoeften van de gezinnen. Kinderen, ouders en psychologen waren over het algemeen tevreden tot zeer tevreden over de inhoud van het programma. Verbeteringen die werden gemeld waren vernieuwing van de ontspanningsoefening, en meer tijd voor de uitwisseling van persoonlijke ervaringen in de ouder component van de interventie.

Samengevat lijkt implementatie van de 'Op Koers' interventie in de klinische praktijk goed mogelijk. Ongeveer 20% van de kinderen met een chronische ziekte lijkt behoefte te hebben aan een interventie als 'Op Koers'. In Hoofdstuk 7 worden verschillende aanwijzingen gegeven voor succesvolle implementatie. Mogelijke tips zijn: (1) verbeter de werving/instream van de interventie (b.v. door middel van systematische screening op psychosociale problemen), (2) wees innovatief in het overkomen van logistieke problemen (b.v. biedt de interventie online aan), (3) let op of de interventiedoelen goed aansluiten bij de behoeften van de gezinnen (pas interventies zoveel mogelijk aan op individuele behoeften of biedt 'stepped-care' aan) en (4) verbeter de behandelintegriteit (b.v. door middel van intensieve training voor cursusleiders).

## Belangrijkste bevindingen

- Kinderen met een chronische ziekte die zich aanmeldden voor een psychosociale interventie hadden significant meer internaliserende gedragsproblemen dan gezonde leeftijdsgenoten
- Het gebruik van vermijdende coping strategieën, een lage eigenwaarde, ouderlijke opvoedingsstress en een onveilige ouder-kind relatie bleken belangrijke risico factoren die geassocieerd zijn met psychosociale problemen
- Deelname aan 'Op Koers' had over het algemeen een positief effect op het psychosociaal functioneren en het toepassen van ziektegerelateerde vaardigheden
- De oudercursus had een meerwaarde op een aantal psychosociale uitkomsten (internaliserende/externaliserende problemen, informatie zoeken en sociale competentie).
- Kinderen die meer als 'at risk' werden aangemerkt profiteerden meer van de interventie, vooral wanneer hun ouders ook aan de cursus deelnamen
- Een veilige ouder-kind relatie bleek noodzakelijk om interventiedoelen te bereiken
- De copingvaardigheden en sociale competentie bleken belangrijke werkzame elementen van 'Op Koers'
- Deelname van ouders aan de cursus zorgde ervoor dat kinderen de geleerde copingvaardigheden vaker gebruikten in het dagelijks leven, wat zich vertaalde in een grotere afname van psychosociale problemen



- Positieve ouder-kind interacties zorgden voor meer gedragsverbetering, maar deelname van ouders aan de cursus had effecten op andere terreinen die zorgden voor verbeteringen in de uitkomsten bij het kind
- Ziektefactoren waren minimaal geassocieerd met psychosociale problemen, en niet met het effect van de interventie