

Samenvatting

Achtergrond, doelstelling en methoden

Naar schatting van de Wereldgezondheidsorganisatie hebben wereldwijd ruim 161 miljoen mensen een visuele beperking: 37 miljoen mensen zijn blind en 124 slechtziend. In 2000 waren in Nederland naar schatting tussen de 33.300 en 45.000 mensen blind en tussen de 115.000 en 175.000 mensen slechtziend. De belangrijkste oorzaken van blindheid en slechtziendheid bij mensen in de leeftijd van 20 tot 65 jaar zijn: opticus neuropathie, tapetoretinale dystrofieën, aan myopie gerelateerde afwijkingen van het netvlies, diabetische retinopathie, leeftijdsgebonden maculadegeneratie, overige netvliesafwijkingen, glaucoom, en cataract. Voor de belangrijkste oorzaken van visuele beperkingen zijn (chirurgische) behandelingen beperkt. De meeste behandelingen zijn erop gericht om de progressie van de oogaandoening te verminderen of de onderliggende aandoening op te sporen en te behandelen zodat verdere schade aan het visuele systeem beperkt wordt. Hoewel de prevalentie bij volwassenen in de leeftijd van 18 tot 65 jaar laag is, is de impact van een visuele beperking op het dagelijks leven erg groot. Daarom doen veel visueel beperkte volwassenen een beroep op revalidatievoorzieningen.

In Nederland zijn diverse revalidatievoorzieningen voor volwassenen met een visuele beperking, waaronder optometristen en multidisciplinaire revalidatiecentra. Visio Het Loo Erf (in Apeldoorn) is een voorbeeld van een multidisciplinair revalidatiecentrum en biedt een intensief revalidatieprogramma aan visueel beperkte volwassenen; het revalidatieprogramma is vooral bedoeld voor mensen met complexe problemen of meervoudige hulpvragen. Het programma bestaat onder andere uit zientraining, ergotherapie, mobiliteitstraining, psychologische en maatschappelijke hulp.

Aantonen van de effectiviteit van revalidatieprogramma's wordt steeds belangrijker. Tot 15 jaar geleden werd de effectiviteit bepaald met behulp van objectieve maten, zoals leessnelheid, loopafstand en de uitvoering van dagelijkse activiteiten. Clinici en onderzoekers zijn zich tegenwoordig meer bewust van de behoefte aan een meer subjectieve maat om de effectiviteit te meten, zoals kwaliteit van leven.

Het belangrijkste doel van het in dit proefschrift beschreven onderzoek is om factoren te identificeren die een verandering in kwaliteit van leven na revalidatie voorspellen bij visueel beperkte volwassenen in de leeftijd van 18 tot 65 jaar.

Specifieke doelstellingen zijn:

- Eigenschappen van de Functional Field Score bepalen, een maat voor de grootte van de visuele beperking;
- Een overzicht geven van literatuurgegevens waarbij kwaliteit van leven van volwassenen een uitkomstmaat is van revalidatie;
- Het vergelijken van de kwaliteit van leven van volwassenen met een visuele beperkingen met die van gezonde volwassenen en volwassenen met een andere chronische aandoening
- Valideren van een van de meest gebruikte visus-gerelateerde kwaliteit van leven vragenlijsten, de VFQ-25;
- Bepalen van de visus-gerelateerde kwaliteit van leven op korte en lange termijn;
- Maken van richtlijnen voor de verwijzing van personen met een visuele beperking naar diverse revalidatie mogelijkheden in Nederland.

In Hoofdstuk 2 en 3 wordt ingegaan op de Functional Field Score; de deelonderzoeken zijn gebaseerd op een retrospectief dossieronderzoek van alle slechtziende patiënten die deelnamen aan een observatieprogramma voorafgaand aan een revalidatieprogramma. We selecteerden de data van 58 patiënten van 18 jaar of ouder, van wie zowel een Goldmann III-4e als een V-4e gezichtsveld was bepaald in ten minste één oog.

De meeste deelonderzoeken beschreven in dit proefschrift (hoofdstukken 5, 6 en 7) zijn gebaseerd op een prospectief cohort onderzoek naar de kwaliteit van leven van volwassenen met een visuele beperking. Inclusiecriteria voor deelname aan de studie waren: een leeftijd van 18 jaar of ouder, voldoende kennis van de Nederlandse taal en voldoende cognitieve mogelijkheden (beoordeeld door een psychodiagnostisch werker) om de vragen uit de vragenlijst te kunnen begrijpen. Deelnemers aan het onderzoek werd gevraagd drie keer een kwaliteit van leven vragenlijst in te vullen: aan het begin (tijdens de observatieweek voorafgaande aan de revalidatie), drie maanden respectievelijk één jaar na afloop van de revalidatie. De vragenlijst werd aan het begin door 129 deelnemers ingevuld, drie maanden respectievelijk één jaar na afloop van de revalidatie door 87 en 77 mensen.

De deelonderzoeken in hoofdstukken 4 en 8 zijn gebaseerd op gegevens die verzameld zijn uit systematisch literatuuronderzoek.

Functional Field Score (FFS)

De Functional Vision Score (FVS) werd in 2001 door de American Medical Association (AMA) opgenomen in de Guides for the Evaluation of Permanent Impairment. Deze score is opgebouwd uit een Functional Acuity Score (FAS) en een Functional Field Score (FFS). In het onderzoek in dit proefschrift hebben we de scoringsmethode (grid-methode) en berekening van de FFS onder de loep genomen. Ondanks het feit dat de grid-methode veel wordt gebruikt bij het bepalen van de grootte van een gezichtsveld, is de betrouwbaarheid tot op heden nog niet onderzocht. De grootte van het gezichtsveld hangt af van de sterkte en grootte van de stimulus. Hoewel een gezichtsveld over het algemeen wordt bepaald met behulp van een stimulus met grootte III en intensiteit 4-e, blijkt dat niet alle slechtziende patiënten in staat zijn om deze stimulus waar te nemen. In dat geval wordt een grotere stimulus aangeboden.

In hoofdstuk 2 evalueerden wij de intra- en interbeoordelaars reproduceerbaarheid van de FFS. Voor de gezichtsvelden met stimuli III-4e en V-4e, werd respectievelijk de FFS_{III-4e} en de FFS_{V-4e} bepaald. De Functional Field Scores van de isopters III-4e en V-4e werden geanalyseerd. Twee beoordelaars scoorden onafhankelijk van elkaar de gezichtsvelden. Het kleinste detecteerbare verschil dat nog uitstijgt boven de meetfout ('smallest detectable difference' SDD) en de gewogen kappa werden gebruikt om de overeenstemming tussen de beoordelaars te kwantificeren. De SDD's waren kleiner dan het minimale klinisch relevante verschil ('minimally clinically important difference' MCID) van 10 punten. De MCID kan hierdoor worden onderscheiden van de meetfout. De intraklasse correlatie coëfficiënt (ICC) werd gebruikt om de betrouwbaarheid te kwantificeren. De intra- en inter- ICC's waren hoog ($ICCs > 0.98$). De conclusie was dat zowel de intra- als interbeoordelaarsbetrouwbaarheid van de FFS zeer goed was.

In het deelonderzoek in hoofdstuk 3 onderzochten we de onderschatting van het gezichtsveld in FFS tussen de Goldmann isopter III-4e en isopter V-4e bij patiënten met een visuele beperking. Hieruit werd een voorspellend model ontwikkeld voor de FFS_{III-4e} , gebaseerd op de FFS_{V-4e} waarbij gecorrigeerd werd voor mogelijke confounders. Met behulp van lineaire regressie werd het model ontwikkeld waarbij FFS_{III-4e} als de afhankelijke variabele en FFS_{V-4e} als de onafhankelijke variabele werden gekozen. De FFS_{V-4e} was groter dan de FFS_{III-4e} , waarbij het verschil 14.6 punten was. Multiple lineaire regressie toonde aan dat leeftijd, FAS, primaire oogheelkundige aandoening en centraal/perifere gezichtsvelduitval geen confounders waren in de voorspelling van

FFS_{III-4e}. De FFS_{III-4e} kan worden geschat met behulp van de volgende vergelijking: $FFS_{III-4e} = -19.25 + 1.063 * FFS_{V-4e}$. In de praktijk is het aftrekken van 19.25 van de FFS_{V-4e} voldoende om de waarde van de FFS_{III-4e} te schatten. Dit model kan dus worden gebruikt wanneer alleen een gezichtsveld met een stimulus groter dan Goldmann III-4e kan worden bepaald.

Kwaliteit van leven van volwassenen met een visuele beperking

De toegenomen aandacht voor visus-gerelateerde kwaliteit van leven heeft geleid tot verscheidene onderzoeken naar het effect van revalidatieprogramma's op de kwaliteit van leven. Deze onderzoeken maakten gebruik van diverse visus-gerelateerde kwaliteit van leven vragenlijsten voor diverse populaties, waardoor het op basis van individuele studies moeilijk is om de effectiviteit van revalidatieprogramma's te bepalen en de programma's met elkaar te vergelijken. Daarom hebben we een systematisch literatuuronderzoek verricht naar het bewijs van de effectiviteit van verschillende revalidatieprogramma's op het verbeteren van de kwaliteit van leven van volwassenen met een visuele beperking (hoofdstuk 4). Eerst werd systematisch naar literatuur gezocht en er werd literatuur geselecteerd vanuit diverse bronnen. We includeerden (quasi-) gerandomiseerde klinische trials naar kwaliteit van leven bij personen van 18 jaar of ouder, van beide geslachten, met een niet-reversibele visuele beperking. Er werden trials geïnccludeerd die multidisciplinaire revalidatie vergeleken met monodisciplinaire revalidatie en "geen revalidatie". Twee onderzoekers hebben onafhankelijk van elkaar data verzameld en de kwaliteit van de trial bepaald. De tien gevonden studies (11 artikelen) werden ingedeeld in drie categorieën gebaseerd op de interventie die was onderzocht: informatieve groepsprogramma's, methoden voor verbetering visuele mogelijkheden, visuele revalidatieprogramma's; informatieve groepsprogramma's lijken effectiever dan individuele programma's of "geen revalidatie". Sommige methoden voor verbetering van visuele mogelijkheden zijn effectief voor de verbetering van de kwaliteit van leven, zoals verlichtingsaanpassingen en traditionele revalidatieprogramma's. Het voorschrijven van prismabriden is effectief voor de verbetering van de leesvaardigheid, maar niet voor de verbetering van de kwaliteit van leven. Patiënten die een intensief revalidatieprogramma volgden, ervaarden een betere psychosociaal welbevinden en toonden meer onafhankelijkheid in hun dagelijkse activiteiten vergeleken met patiënten die geen revalidatieprogramma volgden. Dit programma had echter geen invloed op de onafhankelijkheid in oriëntatie- en mobiliteitsvaardigheden. In het algemeen blijken niet alle verbeteringen in kwaliteit van

leven stabiel op de lange termijn. Dit kan een indicatie zijn om (betere) nazorgprogramma's te ontwikkelen en aandacht te besteden aan de klinische follow-up van patiënten.

Het bewijs dat geleverd wordt door gerandomiseerde studies ondersteunen het positieve effect van revalidatie op visus-gerelateerde kwaliteit van leven. Het bewijs is echter gebaseerd op eenvoudige studies en de resultaten zullen dan ook nog bevestigd moeten worden in aanvullende studies. De complexiteit en diversiteit van de hulpvragen van de patiënten impliceren dat revalidatieprogramma's zullen moeten worden aangepast aan individuele patiëntenprofielen. Studies naar voorspellende factoren zijn nodig om de patiënten profielen te kunnen bepalen voor specifieke revalidatieprogramma's.

Kwaliteit van leven van visueel beperkte volwassenen in vergelijking met andere chronische aandoeningen

Algemene kwaliteit van leven vragenlijsten zijn bruikbaar bij het vergelijken van kwaliteit van leven van mensen met een visuele beperking met die van mensen met andere chronische aandoeningen die niet gerelateerd zijn aan de visus. In Hoofdstuk 5 wordt de algemene kwaliteit van leven en gezondheidsstatus van volwassenen met een visuele beperking beschreven. De kwaliteit van leven van deze personen wordt vergeleken met die van gezonde Nederlandse volwassenen en met die van volwassenen met een andere chronische aandoening. De volgende chronische aandoeningen werden hierbij gekozen vanwege hun hypothetische invloed op (aspecten van) visus-gerelateerde kwaliteit van leven: acuut hartfalen, chronisch vermoeidheidssyndroom, longziekten, diabetes mellitus type 1, diabetes mellitus type 2, auditieve beperkingen, depressiviteit, andere ernstige psychiatrische aandoeningen, multiple sclerose, herseninfarct of hersenbloeding (CVA) en trauma. De algemene kwaliteit van leven werd gemeten met de EuroQol (EQ-5D), een van de meest gebruikte instrumenten voor dit doel. Deze vragenlijst bestaat uit vijf vragen die de volgende domeinen omvatten: mobiliteit, zelfverzorging, dagelijkse activiteiten, pijn of onbehagelijkheid, en angst of depressie. De EQ-5D scores van visueel beperkte volwassenen werden vergeleken met de EQ-5D norm scores van een gezonde Nederlandse populatie en met de scores van volwassenen met andere chronische aandoeningen. Alle datasets werden uit de literatuur gehaald. Uit ons onderzoek blijkt dat een visuele beperking een substantiële impact heeft op de kwaliteit van leven vergeleken met die van andere chronische aandoeningen en volledige gezondheid. De gemiddelde EQ-5D_{index}-score van mensen met een visuele beperking was 0.73. De waarden van de EQ-5D_{index}-score

liggen op een schaal waarbij 0 overeenkomt met “dood” en 1 met een perfecte gezondheidstoestand. Volwassenen met een visuele beperking ervaren op iedere dimensie van de EQ-5D meer problemen dan gezonde personen. Alleen patiënten met het chronisch vermoeidheidssyndroom en CVA-patiënten ervaren op iedere dimensie meer problemen dan volwassenen met een visuele beperking. Visuele beperkingen lijken de kwaliteit van leven meer te beïnvloeden dan diabetes mellitus type 2, acuut hartfalen en auditieve beperkingen, maar hebben minder invloed dan CVA, multiple sclerose, chronisch vermoeidheidssyndroom, depressie en ernstige psychiatrische aandoeningen.

Evaluatie van een visus-gerelateerde kwaliteit van leven vragenlijst

De ‘Visual Functioning Questionnaire’ (VFQ-25) is een van de meest gebruikte meetinstrumenten voor visus-gerelateerde kwaliteit van leven. Deze vragenlijst voldoet echter niet aan een aantal psychometrische criteria. In Hoofdstuk 6 hebben we een herevaluatie uitgevoerd van de psychometrische eigenschappen van de VFQ-25 voor een groep van visueel beperkte volwassenen in de leeftijd van 18 tot 65 jaar. Drie vragen met betrekking tot autorijden werden uit de verdere analyses gelaten, omdat deze een extreem plafondeffect toonden of teveel ontbrekende waarden hadden. De overige items werden eerst onderworpen aan een exploratieve factoranalyse. Vervolgens werd een Rasch analyse uitgevoerd op iedere factor. We bestudeerden de drempelwaarden van de items en of de data passen bij het betreffende model. De resultaten laten zien dat een aanpassing nodig is van de originele factorstructuur van de VFQ-25. Uit de factoranalyse blijkt dat er vier factoren aan te wijzen zijn: ‘Activiteiten voor dichtbij zien’, ‘Activiteiten voor veraf zien & Mobiliteit’, ‘Mentale gezondheid & Afhankelijkheid’, en ‘Pijn & Onbehagelijkheid’. Met deze factoren werd 46.4% van de variantie verklaard. De meeste items vertoonden ongeordende drempelwaarden. De originele vijfpunt-scoringschalen werden daarom gecomprimeerd tot een vier- of driepuntschaal, door respectievelijk twee of drie antwoordcategorieën samen te voegen. Na het samenvoegen van de antwoordcategorieën waren de drempelwaarden van alle items geordend. De factor ‘Activiteiten voor dichtbij zien’ paste zeer goede, de factor ‘Activiteiten voor veraf zien & mobiliteit’ paste ook. De overige twee factoren sloten onvoldoende aan bij het model. Ten slotte bestudeerden we eventuele ‘differential item functioning’ (DIF). Hiervan is sprake als een vraag (item) anders wordt geïnterpreteerd bij verschillende subgroepen, waardoor mensen in de verschillende subgroepen niet dezelfde kans hebben op een bepaalde uitkomst. Twee

vragen vertoonden DIF voor de subgroepen op basis van leeftijd en tijdstip van ontstaan van de visuele beperking.

Voorspellende factoren voor kwaliteit van leven van volwassenen tussen 18 en 65 jaar met een visuele beperking

Het belangrijkste doel van revalidatie van volwassenen met een visuele beperking is het verbeteren van de kwaliteit van leven en de (sociale) participatie. De complexiteit en diversiteit van de hulpvragen van de patiënten maken het noodzakelijk om het revalidatieprogramma af te stemmen op patiëntenprofielen. Deze profielen kunnen worden gebaseerd op voorspellende factoren die verantwoordelijk zijn voor de verschillen in de uitkomst van kwaliteit van leven tussen verschillende groepen patiënten (prognostische factoren). In hoofdstuk 7 hebben we de korte en lange termijn uitkomsten op kwaliteit van leven na een intensief revalidatieprogramma en prognostische factoren voor de verandering in kwaliteit van leven bepaald. De veranderingen tussen de verschillende meetmomenten op de vier factoren van de VFQ-25 werden gemeten en de longitudinale relatie tussen visus-gerelateerde kwaliteit van leven en mogelijke prognostische factoren werd geëvalueerd door middel van random coëfficiënt analyses. Wanneer de scores op de factoren één jaar na de revalidatie werden vergeleken met baseline scores, liet de subschaal “Mentale gezondheid & Afhankelijkheid” een significante verbetering zien. Leeftijd bleek een voorspellende factor voor alle subschalen. Bovendien was de FVS en het tijdstip van ontstaan van de visuele beperking voorspellend voor een verandering in kwaliteit van leven op de subschaal “Pijn & Onbehagelijkheid”. Hoewel aanvullende studies nodig zijn om onze resultaten te bevestigen, kunnen de huidige resultaten gebruikt worden om patiëntenprofielen op te stellen en revalidatieprogramma’s daarop aan te passen.

Richtlijnen voor de verwijzing van slechtzienden en blinden

Hoewel er verscheidene richtlijnen bestaan voor de verwijzing van slechtzienden en blinden naar hulpverleners en instellingen voor mensen met een visuele beperking, is alleen de richtlijn van de “American Academy of Ophthalmology” een evidence based richtlijn, gebaseerd op het op dat moment best beschikbare bewijs. Deze richtlijn is echter niet toepasbaar op de organisatie van de Nederlandse gezondheidszorg, zodat een nieuwe evidence based richtlijn voor de Nederlandse situatie ontworpen werd. We hebben systematisch in de literatuur gezocht naar definities van visuele beperkingen, arts-patiënt communicatie en naar uitkomsten van interventies bij personen met een visuele beperking.

Resultaten uit de geselecteerde artikelen werden samengevat en gescoord naar het niveau van de bewijskracht. Andere overwegingen zoals de huidige organisatie van de revalidatie in Nederland, werden hierin meegenomen. We hebben daarom een kleine aanpassing gemaakt in de criteria voor visuele beperkingen van de WHO om alle personen te kunnen verwijzen die problemen hebben met lezen en andere activiteiten van het dagelijks leven als gevolg van de visuele beperking. Een groot aantal aanbevelingen werd in de richtlijnen gegeven. Een van de aanbevelingen was dat de volledige diagnose aan de patiënt moet worden meegedeeld. Daarnaast moet de arts een mogelijkheid bieden voor een tweede gesprek waarin de diagnose en therapiemogelijkheden nogmaals met de patiënt besproken worden. Een andere aanbeveling is dat over het algemeen volwassenen met een visuele beperking verwezen moeten worden voor het verkrijgen van de juiste hulpmiddelen naar een optometrist of regionaal revalidatiecentrum, en patiënten met complexe problemen en meer hulpvragen naar een revalidatiecentrum.

Conclusies

Een van de centrale thema's in dit proefschrift waren de betrouwbaarheid en validiteit van de Functional Field Score (FFS) als onderdeel van de Functional Vision Score (FVS); de betrouwbaarheid en overeenstemming tussen de beoordelaars van de FFS blijken voldoende te zijn. De FFS die correspondeert met Goldmann stimulus III-4e kan worden geschat met behulp van de FFS die correspondeert met Goldmann stimulus V-4e door 19.25 punten van deze laatste score af te trekken. De overschatting van de FFS als gevolg van het gebruik van een grotere stimulus leidt tot een aanmerkelijk hogere FVS. Dit kan grote gevolgen hebben voor de hoogte van een (arbeidsongeschiktheids- of letselschade-) uitkering. Daarom hebben we aanbevolen om de berekening van de FVS op dit punt in de volgende editie van de AMA-guides aan te passen.

Een tweede belangrijke doelstelling was om de algemene en visus-gerelateerde kwaliteit van leven van volwassenen tussen de 18 en 65 jaar met een visuele beperking vast te stellen. De algemene kwaliteit van leven blijkt verminderd te zijn in vergelijking met die in een gezonde populatie. Vergeleken met de kwaliteit van leven van patiënten met andere chronische aandoeningen heeft een visuele beperking meer effect op kwaliteit van leven dan in geval van diabetes mellitus type 2, acuut hartfalen, auditieve beperkingen, en minder effect dan bij CVA, multiple sclerose, chronisch vermoeidheidssyndroom, een depressieve stoornis en andere ernstige psychiatrische aandoening. Om de visus-gerelateerde kwaliteit van leven te bepalen hebben we een van de meest gebruikte vragenlijsten, de VFQ-25,

opnieuw geëvalueerd op psychometrische eigenschappen. Hoewel onze resultaten met betrekking tot deze evaluatie nog moeten worden bevestigd en aanvullende analyses moeten worden uitgevoerd, kunnen we stellen dat de nieuwe factorstructuur van de VFQ-25 een beter alternatief is dan de originele structuur.

Tot slot hebben we aangetoond dat bewijs met betrekking tot verbetering in kwaliteit van leven als uitkomst van revalidatieprogramma's erg schaars is. Het systematische literatuuroverzicht in Hoofdstuk 4 laat enig bewijs zien voor de effectiviteit van onderdelen van revalidatieprogramma's. In dit proefschrift worden de eerste resultaten gepresenteerd van lange-termijn uitkomsten naar kwaliteit van leven bij volwassenen tussen de 18 en 65 jaar. Over het algemeen blijken de veranderingen in kwaliteit van leven klein te zijn. De revalidatieprogramma's zouden meer op de individuele behoeften kunnen worden toegesneden. Leeftijd, FVS en tijdstip van ontstaan van de visuele beperking waren voorspellers van een verandering in kwaliteit van leven. Deze voorspellers kunnen worden gebruikt om de revalidatieprogramma's aan te passen. Deze informatie kan ook in de toekomst behulpzaam zijn bij het verwijzen van specifieke groepen patiënten. In de huidige situatie, kunnen de in dit proefschrift gepresenteerde richtlijnen en aanbevelingen voor verwijzing, die gebaseerd zijn op het best beschikbare bewijs, gebruikt worden voor de verwijzing naar hulpverleners en instellingen voor revalidatie van mensen met een visuele beperking.