

## Literatuur review - 2012

# Effecten van zelfmanagementeducatie bij kinderen met JIA

door Ronald van Houwelingen

## Samenvatting

**Inleiding** Kinderen met Juvenile idiopathische artritis (JIA) worden in het dagelijks leven belemmerd op zowel functieniveau als op het niveau van activiteiten en participatie. Het omgaan met JIA geeft daarnaast ook de nodige emotionele en sociale problemen.

**Vraagstelling.** Wat is er in de literatuur bekend over het optimaal inrichten van educatieve zelfmanagement bij kinderen met JIA en welke effecten zijn hiervan beschreven?

**Methode** De online databases Pubmed (Medline), Cochrane, PEDro en Cinahl zijn systematisch doorzocht op relevante publicaties over zelfmanagementeducatie bij kinderen met JIA.

**Resultaten** Vijf artikelen voldeden aan de inclusiecriteria. Het betreft kleinschalige onderzoeken bij kinderen met JIA (in de leeftijd van 2 tot 19 jaar). De interventies werden zeer divers ingericht, variërend van familie georiënteerde educatieve seminars tot online zelfmanagementprogramma's. Significante effecten werden gemeten, zoals afname van pijn, toename van ziektekennis, toename van het fysieke activiteitsniveau en toename van de intensiteit tijdens deelname aan sport en spel.

**Discussie** Door de diversiteit qua vorm en inhoud van de educatie is er vrijwel geen causaal verband aan te wijzen tussen de onderzochte interventies en de uitkomstmaten.

**Conclusie** Educatie van zelfmanagement leidt tot significante effecten: afname van pijn, toename van ziektekennis en toename van het dagelijkse fysieke activiteitsniveau.

**Keywords** JIA, zelfmanagement, educatie, self-efficacy, effectstudie.

## Inleiding

Juvenile idiopathische artritis (JIA) is de meest voorkomende vorm van chronische reumatische aandoeningen bij kinderen. De overkoepelende term JIA omvat alle vormen van artritis die beginnen vóór het 16e levensjaar en langer duren dan zes weken, zonder bekende oorzaak, waarbij overige aandoeningen geëxcludeerd zijn<sup>1</sup>. Een actieve gewrichtsontsteking is te herkennen aan een verhoogde huidtemperatuur, zwelling en/of hydrops van het gewricht, pijn bij bewegen en/of belasten, bewegingsbeperking en functieverlies<sup>2</sup>. Gebaseerd op Europese studies wordt de incidentie van JIA geschat op 5 tot 22 patiënten per 100.000 kinderen per jaar (1 op de 10.000). De prevalentie wordt geschat op zo'n 20 tot 150 patiënten per 100.000 kinderen (1 per 1000)<sup>3-6</sup>. In Nederland hebben tussen de 3.000 en 4.000 kinderen de diagnose JIA, met een toename van 300 nieuw gediagnosticeerde patiënten per jaar<sup>7</sup>. JIA is een auto-immuunziekte: het afweersysteem ziet lichaamseigen eiwitten in het gewrichtskraakbeen voor lichaamsvreemd aan. De auto-immuunrespons die daarop volgt speelt een initiërende rol bij JIA<sup>8</sup>.

Veel kinderen met JIA worden nog steeds beperkt tijdens het uitvoeren van activiteiten in het dagelijks leven, ondanks ontwikkelingen in medicatie<sup>9</sup>. Op *stoornisniveau* krijgen zij te maken met veranderingen in de fysieke mogelijkheden van het lichaam door pijn, krachtvermindering, afnemende gewrichtsmobiliteit, standsafwijkingen en deformiteiten. Veranderingen in de kinesiologicalische relaties en in de biomechanische verhoudingen beïnvloeden kwaliteit en kwantiteit van het houdings- en bewegingsapparaat. Beperkingen worden ervaren op *activiteitsniveau* wat betreft vermoeidheid, conditie en zelfredzaamheid. Tot slot is er bij kinderen met JIA vaak een verstoorde ontwikkeling op het gebied van intermenselijke interacties en relaties. Het *participatieniveau* wordt beperkt als het gaat om de mate van zelfstandigheid, schoolse activiteiten en vrijetijdsbesteding. Door de JIA ontstaat vaak een verminderde deelname aan taken en/of rollen die passen bij de leeftijd, het gezin en de maatschappelijke situatie<sup>7</sup>.

Middels diverse kwalitatieve literatuurstudies werd de sociaal-emotionele beleving van kinderen en jongeren met JIA onderzocht, waarbij zes hoofdthema's een grote rol blijken te spelen<sup>10-12</sup>:

1. aversie om 'anders' te zijn (de intense onvoorspelbare pijn leidt vaak tot het niet mee kunnen doen met sociale activiteiten, minder bewegen en sporten, en ongewilde afhankelijkheid);
2. streven naar 'normaal' zijn (de sociale identiteit willen behouden leidt vaak tot geheimhouding van de ziekte, grip willen hebben over het lichaam en de pijn, steun zoeken in contact met lotgenoten);
3. gestigmatiseerd worden en zich niet begrepen voelen (de onvoorspelbaarheid en onzichtbaarheid van artritis leidt tot onbegrip en/of bagatelliseren door anderen en discriminatie tijdens de carrière);
4. onzeker worden door de grilligheid van de JIA (door de overweldigende pijn ontstaan emotionele schommelingen: gevoel van controle over het lichaam wisselen af met machteloosheid; depressieve gevoelens en verslagenheid wisselen af met vertrouwen in de mogelijkheid van volledig herstel);
5. omgaan met behandelmogelijkheden (een aversie tegen medicatie-inname kan worden ontwikkeld, zelf mogen beslissen is belangrijk en uitleg over therapiemogelijkheden is daarom noodzakelijk);
6. ziekte-kennis en ziekte-inzicht (medicatiekennis en ziekte-inzicht kunnen leiden tot adequaat omgaan met de klachten, dit geeft kinderen met JIA het gevoel de JIA te 'managen' (empowerment)).

Indien mogelijk moet al tijdens de vroege of acute fase na het ontstaan van de ziekte gerichte informatie aan zowel kind als ouders worden verstrekt door de kinderfysiotherapeut over de gevolgen voor het motorisch functioneren en de algehele ontwikkeling van het kind<sup>8</sup>. Ook het leren herkennen van gewrichtsklachten is essentieel. Hiermee moet rekening worden gehouden als het gaat om het al dan niet gedoseerd meedoen met sport en spel of het gebruik van voorzieningen. De adviezen moeten afgestemd zijn op de ernst en uitgebreidheid van de gewrichtsklachten en zo nodig worden aangepast tijdens evaluatie door de kinderfysiotherapeut<sup>8</sup>. Al deze educatie heeft tot doel dat kinderen met JIA zelf in staat zijn om hun klachten te 'managen', oftewel: zelfmanagement.

Het stimuleren van zelfmanagement gaat altijd uit van een gelijkwaardige samenwerking tussen patiënt en therapeut. Ondersteunen van leer- of groeiprocessen, bevorderen van het zelfsturend vermogen, versterken van het zelfvertrouwen en realiseren van persoonlijke doelen staan hierbij centraal. Zelfmanagement vraagt om kennis en vaardigheden op medisch-technisch gebied, maar ook om vertrouwen in eigen kunnen (self-efficacy) en zelfsturing. Zelfmanagement wordt gedefinieerd als het individuele vermogen goed om te gaan met symptomen, met de behandeling en consequenties van de chronische aandoening en met de bijbehorende aanpassingen in leefstijl<sup>13</sup>. Patiënteducatie heeft tot doel om veranderingen teweeg te brengen in het gedrag, coping stijlen, gezondheid en/of verminderen van klachten. Het behalen van deze doelen betreft niet alleen de patiënt, maar ook zijn of haar gehele familie: dit is in het bijzonder geval bij kinderen.

Na het diagnosticeren van de JIA door de kinderarts-reumatoloog bestaat de mogelijkheid dat het kind wordt verwezen naar een JIA kinderteam<sup>14</sup>. De auteur van dit artikel is werkzaam in het JIA kinderteam van Reade, een centrum voor revalidatie en reumatologie. Dit team bestaat uit een aantal kinderarts-reumatologen, een kinderrevalidatiearts, fysiotherapeuten, ergotherapeuten, een maatschappelijk werker, psychologen, podotherapeuten en bewegingsagogen. Zelfmanagement vaardigheden blijken in ieder geval vanaf het twaalfde levensjaar een essentieel onderdeel te zijn bij het omgaan met een chronische aandoening zoals JIA<sup>10-12,15</sup>. Echter, er is weinig literatuur gepubliceerd over het optimaal aanbieden van deze educatie en de effecten hiervan. Derhalve heeft dit literatuuronderzoek de volgende onderzoeksvraag:

*Vraagstelling.* Wat is er in de literatuur bekend over het optimaal inrichten van educatie ten aanzien van zelfmanagement bij kinderen met JIA en welke effecten zijn hiervan beschreven?

## Methode

### Zoekstrategie.

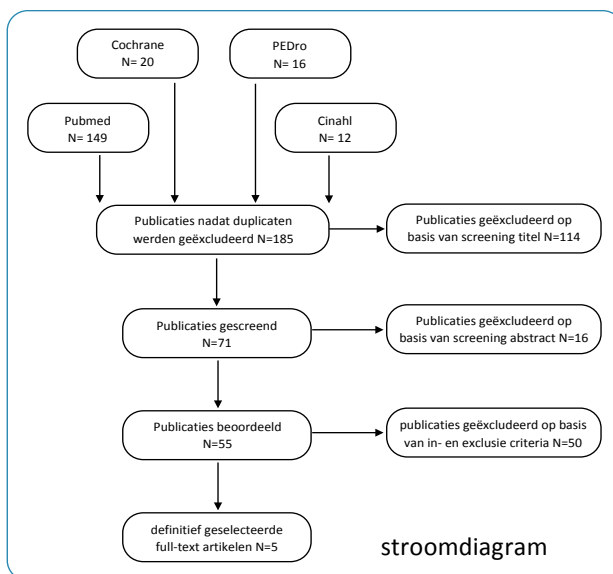
De online databases Pubmed (Medline), Cochrane, PEDro en Cinahl zijn systematisch doorzocht op relevante publicaties over zelfmanagementeducatie bij kinderen met JIA. De MESH-zoektermen, trefwoorden en synoniemen zijn te vinden in het kader hier onder. De zoekstrategie werd verricht middels de categorieën "patiëntenpopulatie", "aandoening" en "interventie". Een uitgebreide beschrijving van alle gehanteerde zoektermen en de combinaties is te vinden in bijlage 1. De artikelen uit de vier databases werden door één persoon gescreend op titel en beoordeeld op basis van abstract en in- en exclusiecriteria (zie stroomdiagram). De referenties van de gevonden publicaties zijn handmatig doorzocht op aanvullende geschikte studies en er is gezocht naar gerelateerde artikelen via Pubmed. Persoonlijk contact met auteurs en experts op het gebied van JIA heeft geen aanvullende literatuur opgeleverd.

Zoektermen: child; children; disabled children; adolescent; arthritis, juvenile rheumatoid; juvenile idiopathic arthritis; juvenile arthritis; JIA; self care; health promotion; education; behavior therapy; counseling; occupational therapy; self management; self efficacy; self-efficacy; educational interventions; empowerment; coping strategies; coping.

### Selectiecriteria.

Om publicaties over zelfmanagement-educatie bij kinderen met JIA te selecteren werden de volgende inclusiecriteria gehanteerd:

- 1) Onderzoekspopulatie: kinderen en/ of jongeren t/m 19 jaar met JIA.
- 2) De interventie en de uitkomsten moesten beschreven zijn (effectstudies)
- 3) Interventie: zelfmanagementeducatie
- 4) De interventie moest gericht zijn op de onderzoekspopulatie (en niet alleen voor de ouders/verzorgers).
- 5) Publicatieperiode: de afgelopen 20 jaar (1992-2012).
- 6) De onderzoeken moesten in het Engels of Nederlands zijn geschreven.



### Data-extractie.

Voor een overzicht van de resultaten werd een data-extractietabel gecreëerd (zie tabel 1). Hierin zijn eenvoudig de volgende gegevens te vinden: auteur en jaar publicatie, type studie, patiëntenpopulatie, interventie, controlegroep, uitkomstmaten, resultaten, conclusie en de methodologische beoordeling.

### Beoordeling.

Sackett et al<sup>16</sup> beschrijven een indeling van de verschillende typen onderzoek naar de mate van bewijskracht. De bewijskracht van de geselecteerde studies vallen allemaal binnen categorie 2b (low-quality RCT's), zoals beschreven door Sackett et al<sup>16</sup>.

De methodologische kwaliteit van de geïncludeerde artikelen is beoordeeld met de PEDro scale<sup>17,18</sup>. Het doel van de PEDro scale is om lezers snel inzicht te geven in de interne validiteit (criteria 2-9) en de interpreteerbaarheid (criteria 10-11) van RCT's en CCT's. Criteria (1) beoordeeld de toepasbaarheid van het onderzoek, maar wordt niet meegenomen in de PEDro score.

## Resultaten

De zoekstrategie in Pubmed (Medline), Cochrane, PEDro en Cinahl leverde in totaal 185 artikelen op (na exclusie van duplicaten) zoals beschreven in het stroomdiagram. Na een screening op titel en abstract bleven 55 artikelen over. Beoordeling van de full-text artikelen op basis van in- en exclusiecriteria leverde een selectie op van vijf relevante artikelen<sup>19-23</sup>. De data-extractietabel geeft de informatie uit deze artikelen overzichtelijk weer. Onder de data-extractietabel staat een uitleg van alle gebruikte afkortingen en meetinstrumenten.

De vijf geselecteerde artikelen, gepubliceerd in peer-reviewed tijdschriften vanaf 1992 t/m 2012, bestaan uit drie pilot RCT's<sup>19,20,22</sup> en twee pilotstudies<sup>21,23</sup>. De deelnemers aan deze onderzoeken zijn gediagnosticeerd met JIA en hadden een leeftijd variërend van 2 tot 19 jaar. Eén onderzoek<sup>19</sup> koos voor een afgebakende leeftijd van 8-12 jaar bij de deelnemers. Twee studies includeerden adolescenten in de leeftijd van 12-18 jaar<sup>20,21</sup>. De overige twee onderzoeken<sup>22,23</sup> includeerden kinderen van 3-17 en 2-19 jaar, waarbij ouders en familieleden intensief betrokken waren.

De enige overeenkomst van alle *interventies* was dat er zelfmanagementeducatie werd gegeven aan de deelnemers. Hagglund et al<sup>23</sup> en Andre et al<sup>22</sup> onderzochten een interventie middels één of meerdere bijeenkomsten met therapeutische educatieve seminars<sup>22,23</sup>. Drie recentere publicaties beschrijven de effecten van een online zelfmanagementprogramma<sup>19-21</sup>. In de vijf geselecteerde artikelen worden in totaal vier afzonderlijke interventies beschreven die elk op unieke wijze werden ingericht. De educatie wordt in de artikelen alleen beschreven als het gaat om de besproken thema's. De interventieduur varieerde sterk: 8 uur therapeutische seminars<sup>22</sup>, een familieweekend van 3-dagen<sup>23</sup> en online programma's van 12 weken<sup>20,21</sup> of 17 weken<sup>19</sup>. De online modules werden gecombineerd door groepsbijeenkomsten met alle deelnemers en ouders<sup>19</sup> of door wekelijks telefonisch contact met een coach<sup>20,21</sup>. De therapeutische educatie werd aangepast aan de leeftijd van de kinderen<sup>22,23</sup>. Tijdens het familieweekend<sup>23</sup> waren alle familieleden welkom.

Drie onderzoeken beschikten over een *controlegroep* en kregen een restrictie ten aanzien van deelname aan vergelijkbare educatieve programma's<sup>19,20,22</sup>. Zij kregen wel reguliere zorg en therapieafspraken. De controlegroepen kregen geen beweeg- en/of sportrestricties. De controlegroep van Lelieveld et al<sup>19</sup> werd op de wachtlijst gezet voor latere deelname aan de interventie. De controlegroep van Stinson et al 2010<sup>20</sup> had tijdens de interventie wekelijks telefonisch contact met een onderzoeksassistent over hun eigen ziekte-management.

De *uitkomstmaten* werden eveneens zeer divers ingericht. Drie onderzoeken lieten hun interventie door de deelnemers beoordelen<sup>19,20,22</sup>. Vier onderzoeken<sup>20-23</sup> maten de pijn als uitkomstmaat, met behulp van vier verschillende meetinstrumenten (RPI, DEQ, MEPS en PPQ). Stinson et al en Andre et al hanteerden beiden de MEPS als uitkomstmaat voor het meten van ziektekennis. Lelieveld et al<sup>19</sup> beoordeelden veranderingen in dagelijkse activiteiten, het fysieke activiteitsniveau, het energieverbruik tijdens activiteiten en het uithoudingsvermogen. Stinson et al beoordeelden de ziektekennis, self-efficacy, therapietrouw, kwaliteit van leven, pijn en stress. White et al<sup>21</sup> richtten zich op het onderzoeken van de therapeutische vertrouwensrelatie tijdens online interventie. Hagglund et al beoordeelden het gedrag en de pijn bij de kinderen en de stress/spanning bij hun ouders.

*Resultaten.* Bij de drie online programma's<sup>19-21</sup> werd direct voor en na de interventie gemeten, zonder follow-up meting. De overige twee onderzoeken hadden wel follow-up metingen, respectievelijk vier en zes maanden na interventie<sup>22,23</sup>. Stinson et al en Andre et al rapporteerden significante effecten wat betreft toename van de ziektekennis (beide  $p < 0.001$ ) en afname van de pijn ( $p = 0.03$  en  $p < 0.05$ ). Waar Stinson et al geen significante toename van de self-efficacy vaststelden (met de CASE) direct na interventie, rapporteerden Andre et al wel een toename van deze self-efficacy ( $p < 0.05$ ) (met de MEPS), zelfs 4 maanden na de interventie. White et al concluderen op basis van een correlatieanalyse van de WAI-C samengestelde (composite) scores dat er een afname was in gerapporteerde pijn ( $p = 0.03$ ,  $r = 0.625$ ). Lelieveld et al concludeerden dat er een significante toename was van het dagelijkse fysieke activiteitsniveau ( $p < 0.01$ ) en het aantal uren per dag dat matig tot intensief werd bewogen ( $p < 0.01$ ) in vergelijking met de controlegroep. Het energieverbruik tijdens activiteiten

( $p < 0.01$ ) en het uithoudingsvermogen ( $p < 0.05$ ) van de deelnemers nam eveneens significant toe in vergelijking met de controlegroep.

*Conclusies.* De deelnemers aan de interventies beoordeelden de educatieve zelfmanagement-programma's erg positief<sup>19,20,22</sup>. Significante effecten: afname van pijn<sup>20-23</sup>, toename van ziektekennis<sup>20,22</sup> en toename van (matig intensieve) dagelijkse beweging<sup>19,22</sup>. White et al concludeerden dat de therapeutische vertrouwensrelatie die ontstond tijdens een online interventie vergelijkbaar was met een normale therapeutische vertrouwensrelatie. Hagglund et al concludeerden dat de gezinsbenadering van educatie rondom JIA een impact had die niet op individuele basis bereikt had kunnen worden. Inactieve patiënten<sup>24</sup> verbeterden bovendien hun dagelijkse activiteitsniveau met 60 minuten matig intensief bewegen per dag en voldeden daarmee aan de Nederlandse Norm Gezond Bewegen (NNGB)<sup>25</sup>.

*Methodologische beoordeling.* Twee onderzoeken waren al gescoord op de PEDro scale en te vinden in de PEDro database<sup>19,20</sup>. Zij scoorden wat betreft de methodologische kwaliteit op 5/10 en 7/10. De overige drie onderzoeken zijn handmatig beoordeeld op hun methodologische kwaliteit en scoorden respectievelijk 5/10, 5/10 en 2/10 op de PEDro scale<sup>21,22,23</sup>.

Auteur en jaar publicatie	Type studie	Patiënten populatie	Interventie	Controlegroep	Uitkomstmaten	Resultaten	Conclusie	Pedro score
Lelieveld et al <sup>19</sup> 2010  [Nederland]	Pilot RCT	N=33 leeftijd: 8-12jr  diagnose: JIA  M/V: 4/29	<b>Programma</b> 'reumaatjes@work' <b>Duur</b> 17wk (± 30 min IP p.w. en 4 dagdelen) <b>Vorm</b> Wekelijks internet modules en 4 groepsessies met ouders. <b>Aantal</b> N=17, leeftijd 10.6jr±1.5, M/V aantal: 2/15 <b>Uitval</b> 18%. <b>Inhoud</b> Educatie over gezondheid, de oorzaak en effecten van JIA om de kinderen te helpen hun ziekte-management te verbeteren. De voordelen van fysieke activiteiten werden besproken. Self-efficacy en bereikte effecten van fysieke activiteiten werden bekrachtigd. Familie en school hielpen om dagelijkse beweging aan te moedigen. De deelnemers mochten zelf SMART doelen bedenken en formuleren.	<b>Aantal</b> N=16 <b>Leeftijd</b> 10.8jr±1.4 <b>M/V aantal:</b> 2/14 <b>Uitval</b> 0% <b>Inhoud</b> De controle-groep kreeg geen interventie maar werd op de wachtlijst gezet (restrictie educatieve programma's).	<b>UHV</b> Bruce protocol <b>beweging</b> activiteiten dagboek + energie verbruik AEE <b>ziekteactiviteit</b> JIA standaard meting <b>beoordeling</b> evaluatieve vragenlijst	<b>T0:</b> voor, <b>T1:</b> direct na interventie <b>Significante effecten:</b> Activiteit gerelateerd energie verbruik (AEE p<0.01) Fysieke activiteiten niveau (p<0.01) Matig tot intensief bewegen uitgedrukt in uren per dag (p<0.01) Het aantal dagen waarbij ≥ 1u matig intensief werd bewogen (p<0.05) Bruce volhoudtijd +26s, (p<0.05)	<b>Conclusie</b> Inactieve <sup>24</sup> patiënten verbeterden hun dagelijkse activiteitsniveau met 60 min matig intensief bewegen per dag (NNGB) <sup>25</sup> . Het uithoudingsvermogen nam eveneens toe. Het IP bleek veilig, haalbaar en werd positief ontvangen door deelnemers.	5/10  [confirmed score]
Stinson et al <sup>20</sup> 2010  [Canada]	Pilot RCT	N=46 leeftijd: 12-18jr  diagnose: JIA  M/V: 15/31	<b>Programma</b> 'Teens Taking Charge' (TTC) <b>Duur</b> 12 weken (± 30min IP en ±17.3min telefonisch contact p.w.). <b>Vorm</b> Wekelijkse internet modules en telefonische ondersteuning. <b>Aantal</b> N=22, leeftijd 14.5jr±1.48, M/V aantal: 7/15 <b>Uitval</b> 18.1%. <b>Inhoud</b> Educatie over artritis en medicatie behandelmogelijkheden. Leren van coping strategieën voor pijn, vermoedigheid, stress, stijfheid en negatieve gedachten. Educatie over sport, voeding, braces, zelfmonitoring en levensstijlen. Prioriteiten stellen bij schoolgang en planmatig aan de toekomst denken. De ouders kregen twee modules.	<b>Duur</b> 12 weken <b>Aantal</b> N=24 <b>Leeftijd</b> 14.8jr±1.7 <b>M/V aantal:</b> 8/16 <b>Uitval</b> 20.8% <b>Inhoud</b> Wekelijks telefonisch contact van 3 min (2-6) over de eigen ziekte-management.	<b>ziekte-kennis</b> MEPS <b>self-efficacy</b> CASE <b>therapietrouw</b> CARQ&PARQ <b>Kvl</b> JAQQ <b>pijn</b> RPI <b>stress</b> PSQ <b>beoordeling</b> eigen vragenlijst	<b>T0:</b> voor, <b>T1:</b> direct na interventie <b>Significante effecten:</b> Toename ziektekennis (p<0.001) Afname pijn intensiteit (p=0.03) <b>Beoordeling</b> Het programma is leuk; de website werkt makkelijk en prettig. <b>Niet-significante effecten</b> Kvl, self-efficacy, het ervaren van stress en therapietrouw.	<b>Conclusie</b> Het is uitdagend en haalbaar om een IP vol te houden. Met dit IP werd een significante toename van ziekte-kennis en afname van pijn gemeten. De Kvl, fysieke en emotionele klachten veranderden niet significant.	7/10  [confirmed score]
White et al <sup>21</sup> 2012  [Canada]	Pilot study	N=14 leeftijd: 12-18jr diagnose: JIA  M/V: 4/10	<b>Programma</b> 'Teens Taking Charge' (TTC) <b>Duur</b> 12 weken (± 30min IP en ±17.3min telefonisch contact p.w.). <b>Vorm</b> Wekelijks internet modules en wekelijkse coach contact. <b>Aantal</b> N=14, leeftijd 14.57jr±1.23 <b>Uitval</b> 9% <b>Inhoud</b> Educatie over JIA en zelf management strategieën. Beschrijving van het programma is zeer summier, er wordt verwezen naar de publicatie van Stinson et al <sup>20</sup> .	NVT. De resultaten werden vergeleken met eerdere publicaties over de therapeutische vertrouwensrelatie met en zonder bezoek aan een therapeut.	<b>therapeutische vertrouwensrelatie</b> WAI-C, DEQ  <b>ziekteactiviteit</b> globale ziekteactiviteit op VAS-schaal door KFT	<b>T0:</b> voor, <b>T1:</b> direct na interventie <b>Significante afname van</b> Pijn (p=0.03) <b>Beoordeling</b> De therapeutische vertrouwensrelatie werd als sterk ervaren, patiënten vertelden graag persoonlijke info [DEQ].	<b>Conclusie</b> Middels een IP kan een sterke therapeutische vertrouwensrelatie ontstaan die vergelijkbaar is met een normale vertrouwensrelatie en met dit IP kan de pijn worden verminderd.	5/10
Andre et al <sup>22</sup> 2001  [Zweden]	Pilot RCT	N=103 leeftijd: 2-19jr en ouders  diagnose: JIA  M/V: 29/74	<b>Duur</b> 8 uur educatieve seminars (in 1 maand) <b>Vorm</b> Seminars met theoretische en praktische kennis en ruimte voor discussies voor ouders en kinderen in aparte groepen <b>Aantal</b> N=17, 15.5jr (13-19jr); N=63 ouders kinderen 5.5jr (2-12jr) <b>Uitval</b> 18% (8 ouders en 6 adolescenten) <b>Inhoud</b> De seminars werden variërend aangeboden (4x2u of 1x8u), door reumatoloog, fysiotherapeut, ergotherapeut, verpleegkundige, maatschappelijk werker en diëtiste. De theorie werd zo praktisch mogelijk gemaakt en in drie groepen aangeboden afhankelijk van de leeftijd (4-12jr; 13-19jr en de ouders van de kinderen met JIA).	<b>Duur</b> 1 maand <b>Aantal</b> N=18 ouders en N=5 adolescenten <b>Leeftijd</b> 4.5jr (2-7jr); 13.5jr (13-16jr) <b>M/V aantal</b> 5/13; 1/4 <b>Uitval</b> 18% <b>Inhoud</b> Normale zorg met restrictie van een educatief programma.	<b>ziekte kennis</b> MEPS  <b>beoordeling programma</b> MEPS	<b>T0:</b> voor, <b>T1:</b> na, <b>T2:</b> na 4 maanden <b>Significante effecten:</b> Gewrichtsanatomie (p<0.05) (12-19jr) Kennis bloedafname (p<0.05) (12-19jr) Algemene medische kennis (p<0.001) (tot 12jr) SE dagelijkse activiteiten (p<0.05) (tot 12jr) SE reguleren van activiteiten (p<0.05) (tot 12jr) SE pijn afname (p<0.05) (tot 12jr) SE symptoom management (p<0.05) (tot 12jr) SE omgaan met pijn (p<0.001) (tot 12jr)	<b>Conclusie</b> Educatie van ouders en verzorgers van kinderen met JIA is een belangrijk onderdeel van de behandeling van kinderen met JIA. Er werd een significante toename van ziekte-kennis, dagelijkse beweging en een afname van de pijn gemeten.	5/10
Hagglund et al <sup>23</sup> 1996  [Amerika]	Pilot study	N=27 leeftijd: 3-17jr  diagnose: JIA  M/V: 5/22  N=35 (ouders)	<b>Programma</b> JRD Family retreat <b>Duur</b> 3 dagen retraite <b>Vorm</b> Een 3-daags familieweekend met 14u therapeutische educatie en 14u georganiseerde familie georiënteerde recreatieve activiteiten. <b>Aantal</b> N=27, leeftijd 10.37jr±4.31, N=35 40.21jr(27-56) <b>Uitval</b> 19% <b>Inhoud</b> De educatie voor alle gezinsleden werd afhankelijk van de leeftijd en multidisciplinair aangeboden (o.a. betrokken waren een arts, psycholoog, ergotherapeut, fysiotherapeut en maatschappelijk werker). Tijdens de therapeutische sessies werden thema's besproken als JIA management, verbeteren van functionele capaciteiten, aanleren van coping strategieën en helpen van familie-functioneren.	NVT.	<b>gedragsproblemen</b> CBCL <b>pijn meting</b> PPQ&VAS <b>werk-gerelateerde spanning door de ziekte van het kind</b> zelf ontwikkelde vragenlijst <b>psychologische stress van ouders</b> SCL-90-R	<b>T0:</b> direct ervoor, <b>T1:</b> na 6 maanden <b>Significante afname van</b> Innerlijke gedragsproblemen (p=0.01) VAS-pijn op dit moment (p=0.009) <b>Significante afname bij ouders</b> Werk-gerelateerde spanning (p=0.0001) Spanning tijdens de vrije tijd (p=0.0001)	<b>Conclusie</b> Familie retraites met een multidisciplinaire benadering zijn effectief om kinderen met JIA en hun gezinsleden te helpen omgaan met de aandoening. De gezinsbenadering werkte veelomvattend en had een impact die mogelijk niet op individuele basis bereikt had kunnen worden.	2/10

**Tabel 1. Data-extractietabel.** In de tabel gebruikte begrippen: **AEE:** Activity-related Energy Expenditure; **Bruce protocol:** maximale inspanningstest voor kinderen op een loopband; **CARQ:** Child Adherence Report Questionnaire; **CASE:** Children's Arthritis Self-Efficacy scale; **CBCL:** Child Behavior Checklist; **DEQ:** Quantitative Distance Experience Questionnaire Data; **IP:** internetprogramma; **JAQQ:** Juvenile Arthritis Quality of Life; jr: jaar **Kvl:** kwaliteit van leven; **leeftijd:** in jaren ± standaarddeviatie (of de range als de standaarddeviatie niet beschikbaar was); **MEPS:** Medical Issues, Exercise, Pain and Social Support Questionnaire; **min:** aantal minuten; **MVA:** Moderate to vigorous activity (hours/ day) (matig tot intensieve activiteit in uren per dag); **M/V aantal:** aantal jongens/ aantal meisjes; **N:** aantal deelnemers; **NVT:** niet van toepassing (er was geen in dat geval geen controlegroep); **P:** dit is een maat voor de statistische significantie. Hoe kleiner de p-waarde, hoe kleiner de kans is dat dit verschil aan toeval toegeschreven kan worden. p<0,05 betekend: 5% kans op toeval (significante uitkomst), p<0,01: 1% kans op toeval (sterk significante uitkomst); **PAL:** physical activity level; **PARQ:** Parent Adherence Report Questionnaire; **PPQ:** Pediatric Pain Questionnaire; **PSQ:** perceived severity of stress questionnaire; **p.w.:** per week; **RPI:** Recalled Pain Inventory; **SCL-90-R:** Symptom Checklist-90-Revised; **SE:** self-efficacy (vertrouwen in eigen kunnen of zelfredzaamheid) **SoL:** current Strain on Leisure; **r:** correlatiecoëfficiënt (de samenhang tussen twee beoordelingen (test-hertest), hoe dichter bij 1 of -1 hoe beter). **SoW:** current Strain on Work; **T0:** base line meting (voorafgaand aan de interventie); **T1:** eerste meting na de interventie; **T2:** tweede meting na de interventie; **UHV:** uithoudingsvermogen; **Uitval:** percentage deelnemers die niet de volledige interventie hebben voltooid; **VAS:** Visual Analogue Scale; **WAI-C:** Working Alliance Inventory Client Scale; **1HA:** Number of days with ≥ 1 hour of moderate to vigorous activity (aantal dagen met ≥ 1 uur matig tot intensieve activiteit);

## Discussie

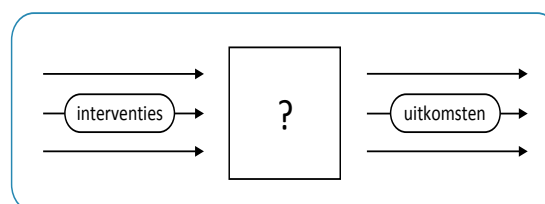
Hoewel er veel literatuur is gepubliceerd over de noodzaak van zelfmanagement educatie voor kinderen met JIA, leverde een uitgebreide zoekstrategie in vier online databases slechts vijf kleinschalige effectstudies op. De deelnemers beoordeelden de educatieve zelfmanagementprogramma's als leerzaam en leuk<sup>19-22</sup>. Significante uitkomsten waren onder andere afname van pijn<sup>20-23</sup>, toename van ziektekennis<sup>20,22</sup> en een toename van het dagelijkse fysieke activiteitsniveau<sup>19,22</sup>.

### *Bijzonderheden.*

Tijdens het beoordelen van de literatuur bleek dat er zeer veel kwalitatieve literatuurstudies zijn verricht over zelfmanagement en educatie van kinderen met JIA en hun ouders. Het eerste gevonden onderzoek over dit onderwerp dateert uit 1963 en beschrijft het 'counselen' van ouders met chronisch zieke kinderen, inclusief de problemen en de gesuggereerde technieken. Vanaf dit eerste onderzoek zijn veel artikelen te vinden<sup>10-13,15</sup> over de noodzaak van zelfmanagementeducatie. De sociaal-emotionele problemen van kinderen met JIA zijn door de jaren heen uitgebreid in kaart gebracht. Desondanks heeft dit in de literatuur vreemd genoeg vrijwel niet geleid tot effectonderzoek naar educatie van deze doelgroep<sup>19,22</sup>. In de gevonden pilotonderzoeken is een verschuiving waar te nemen van educatie in familieverband (10 jaar geleden) richting online zelfmanagementprogramma's.

### *Beperkingen.*

De resultaten uit deze review dienen met enige voorzichtigheid te worden geïnterpreteerd. Gezien de opzet van de onderzoeken (pilotstudies) en de kleine onderzoekspopulaties kunnen de resultaten niet worden veralgemeniseerd.



afbeelding 1: zelfmanagement een black-box?

Het vergelijken van de diverse interventies werd bemoeilijkt aangezien de vorm en inhoud van de educatie zeer divers was ingericht. Hoewel de besproken thema's wel worden beschreven in de onderzoeken is het moeilijk om de inhoudelijke educatie exact vast te leggen. De uitkomstmaten in de diverse onderzoeken werden afgestemd op de inhoud van de besproken thema's en gemeten met een uitgebreid scala aan meetinstrumenten. Hierdoor is vrijwel geen causaal verband aan te wijzen tussen de interventies en de uitkomstmaten. Op basis van de beschreven effectstudies lijkt zelfmanagement een 'black-box', zoals in afbeelding 1 weergegeven.

### *Kanttekeningen.*

In alle geselecteerde onderzoeken werden deelnemers geïnccludeerd die al reguliere zorg hadden gekregen vanaf de diagnosestelling bij de verschillende instellingen. Er kan worden aangenomen dat zij al therapeutische educatie hebben gekregen ten aanzien van ziekte-inzicht, leren omgaan met JIA en het belang van dagelijks bewegen en sporten, zoals beschreven in de inleiding. Dit heeft de onderzoeken mogelijk beïnvloed en geldt zowel voor de deelnemers aan de interventie als de controlegroep. Mogelijk lag de baseline van de controlegroep hierdoor hoger en was het moeilijker om significante verschillen aan te tonen tussen de interventie en de controlegroep.

Bij alle onderzoeken is sprake van een behoorlijk uitvalpercentage welke deels te verklaren valt door afwezigheid in verband met doktersafspraken, ziekte, ziekenhuisbezoek en verminderde therapietrouw. De therapietrouw van adolescenten met JIA is niet zo hoog en te voorspellen<sup>26</sup> op basis van motivatie, angst voor acute klachten, therapeutische ondersteuning, energie, wilskracht en bedreiging van sociaal welzijn. De motivatie is hierbij de belangrijkste voorspeller van therapietrouw<sup>26</sup>.

Alleen bij de therapeutische educatie in familieverband zijn follow-up metingen verricht na respectievelijk vier en zes maanden<sup>22,23</sup>. De drie tot vier maanden durende online interventies<sup>19-21</sup> beschrijven alleen de metingen direct voor en na de interventie. Follow-up metingen ontbreken.

Lelieveld et al kozen voor meting van het aerobe uithoudingsvermogen middels het Bruce protocol, waarbij een belangrijke confounder aanwezig is omdat het de vraag is of er daadwerkelijk de maximale inspanning wordt gemeten of de mate van pijn (dit is afhankelijk van de mate van activiteit van de gewrichtsontstekingen). Niet alleen de interventiegroep, maar ook de controlegroep verbeterde significant op activiteitsniveau. Dit kan verklaard worden door selectiebias bij het includeren van de deelnemers. Alle kinderen (zowel in de interventiegroep als in de controlegroep) waren erg gemotiveerd om deel te nemen aan het onderzoek, het online programma en bovendien bereid om te veranderen.

De controlegroep van Stinson et al kreeg telefonische ondersteuning ten aanzien van het eigen ziekte-management. In principe is dit ook een interventie, waardoor er geen sprake was van een zuivere controlegroep maar eigenlijk werden twee interventies met elkaar vergeleken.

Het onderzoek van White et al geeft geen informatie over meting van de significante afname van pijn op patiëntniveau. Zij bestudeerden de therapeutische vertrouwensrelatie die ontstond tijdens een online interventie. Opvallend genoeg werd deze gemeten met een gewijzigde versie van de WAI-C, omdat de WAI-C ontwikkeld is voor volwassenen. De onderzoekers vereenvoudigden de WAI-C door de woorden te wijzigen, maar hierdoor zijn de uitkomsten met een niet-gevalideerd meetinstrument gemeten. Wellicht zijn de uitkomsten minder betrouwbaar dan de onderzoekers nu concluderen.

Andre et al lijken de meeste deelnemers onderzocht te hebben, maar zij hebben de ouders van de kinderen t/m twaalf jaar meegerekend. Omdat de ouders veranderingen in de self-efficacy rapporteren van hun kinderen is het lastig hen niet mee te rekenen. Het vergelijken van de groeps grootte van de onderzoeken wordt hierdoor echter gecompliceerd. Bij de drie online interventies<sup>19-22</sup> zijn de ouders niet meegerekend, terwijl zij wel educatie kregen en bovendien een stimulerende rol speelden als het gaat om het beïnvloeden van de deelnemers.

#### *Aanbevelingen.*

Het stimuleren van zelfmanagement middels educatie is nog de beginfase, gezien het geringe aantal effectonderzoeken en de beperkte omvang van de onderzoeken. Meer gedetailleerd onderzoek zal moeten worden verricht in grotere populaties, zodat mogelijk causale verbanden kunnen worden gelegd tussen de interventies en uitkomstmaten. In Nederland is momenteel een onderzoeksprotocol<sup>27</sup> ontwikkeld voor een interventie gericht op de cognitieve gedragsverandering van kinderen met een chronische aandoening en hun ouders. Hopelijk zal dit protocol grootschalig worden uitgevoerd en leiden tot een versnelling in de ontwikkeling van educatie op kindniveau.

## **Conclusie**

Er is helaas nog weinig bekend over het optimaal inrichten van educatie ten aanzien van zelfmanagement. Bij vijf kleinschalige effectonderzoeken bleek de educatie zeer diverse ingericht, waardoor nog vrijwel geen causaal verband is aan te wijzen tussen interventies en uitkomstmaten. Educatieve zelfmanagement werd als positief en uitdagend ervaren. Interventies leiden tot significante effecten: afname van pijn, toename van ziektekennis en toename van dagelijkse beweging en het aantal uren per dag matig tot intensief bewegen.



## Referenties

1. Petty RE, Southwood TR, Manners P, Baum J, Glass DN, Goldenberg J, et al. International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis: second revision. Edmonton 2001. *J Rheumatol.* 2004;31:390-2.
2. Klepper S. Making the Case for Exercise in Children With Juvenile Idiopathic Arthritis: What We Know and Where We Go From Here. *Arthritis Rheum.* 2007; 57(6): 887-890.
3. Moe N, Rygg M. Epidemiology of juvenile chronic arthritis in Northern Norway: a ten-year retrospective study. *Clin Exp Rheumatol.* 1998;16:99-101.
4. Andersson GB. Juvenile arthritis – Who gets it, where and when? A review of current data on incidence and prevalence. *Clin Exp Rheumatol.* 1999;17:367-74.
5. Kaipainen-Seppänen O, Savolainen A. Changes in the incidence of juvenile rheumatoid arthritis in Finland. *Rheumatology.* 2001;40:928-32.
6. Von Koskull S, Truckenbrodt H, Hörmann A. Incidence and prevalence of juvenile arthritis in an urban population of southern Germany: a prospective study. *Ann Rheum Dis.* 2001;60:940-5.
7. Werkgroep Reade: JIA behandelprogramma kinderteam Reade. Herziene versie. Amsterdam; 2010.
8. Van Empelen R, Nijhuis-van der Sanden R, Hartman A, editors. *Kinderfysiotherapie*. 2e druk. Maarssen: Elsevier gezondheidszorg; 2008.
9. Takken T, Van Brussel M, Hulzebos HJ. *Inspanningsfysiologie bij kinderen*. Houten: Bohn Stafleu van Loghum; 2008.
10. Tong A, Jones J, Craig JC, Singh-Grewal D. Children's experiences of living with juvenile idiopathic arthritis: A thematic synthesis of qualitative studies. *Arthritis Care Res.* 2012; 64:1392–1404.
11. Barlow J, Shaw K, Harrison K. Consulting the 'experts': children's and parents' perceptions of psycho-educational interventions in the context of juvenile chronic arthritis. *Health Educ Res.* 1999;14:597–610.
12. Stinson JN, et al. Asking the experts: Exploring the self-management needs of adolescents with arthritis. *Arthritis Rheum.* 2007;59:65–72.
13. Barlow J, Wright C, Sheasby J, Turner A, Hainsworth J. Self-management approaches for people with chronic conditions: a review. *Patient Educ Couns.* 2002; 48(2):177-87.
14. Franssen MJAM, Wulffraat NM en Armbrust W (red). *Werkboek kinderreumatologie*. Amsterdam: VU University Press; 2007.
15. Lawson EF, Hersh AO, Applebaum MA, Yelin EH, Okumura MJ en von Scheven E. Self-management skills in adolescents with chronic rheumatic disease: A cross-sectional survey. *Pediatric rheumatology online journal.* 2011;9:35.
16. Sackett DL, Straus SE, Richardson WS, et al. *Evidence-Based Medicine: How to Practice and Teach EBM*. 2nd ed. Edinburgh, Scotland: Churchill Livingstone Inc. 2000:173-177
17. Sherrington C, Herbert RD, Maher CG, Moseley AM. PEDro: a database of randomized controlled trials and systematic reviews. *Man Ther.* 2000;5: 223–6.
18. de Morton NA. The PEDro scale is a valid measure of the methodological quality of clinical trials: a demographic study. *Aust J Physiother.* 2009;55: 129–33.
19. Lelieveld OT, Armbrust W, Geertzen JH, de Graaf I, van Leeuwen MA, Sauer PJ, et al. Promoting physical activity in children with juvenile idiopathic arthritis through an internet-based program: results of a pilot randomized controlled trial. *Arthritis Care Res (Hoboken).* 2010;62:697–703.
20. Stinson JN, McGrath PJ, Hodnett E, Feldman B, Duffy C, Huber A, et al. An internet-based self-management program with telephone support for adolescents with arthritis: a pilot randomized controlled trial. *J Rheumatol.* 2010 Sep;37(9):1944–52.
21. White M, Stinson JN, Lingley-Pottie P, McGrath PJ, Gill N, Vijenthira A. Exploring Therapeutic Alliance with an Internet-Based Self-Management Program with Brief Telephone Support for Youth with Arthritis: A Pilot Study. *Telemedicine and e-Health.* 2012;18:271–276.
22. Andre M, Hagelberg S, Stenström CH. Education in the management of juvenile chronic arthritis. Changes in self-reported competencies among adolescents and parents of young children. *Scand J Rheumatol.* 2001;30:323–7.
23. Hagglund KJ, Doyle NM, Clay DL, Frank RG, Johnson JC, Pressly TA. A family retreat as a comprehensive intervention for children with arthritis and their families. *Arthritis Care Res* 1996;9: 35–41.

24. Ooijendijk WTM, Hildebrandt VH, Hopman-Rock M. Bewegen in Nederland 2000-2005. In: Hildebrandt VH, Ooijendijk WTM, Hopman-Rock M. Trendrapport Bewegen en gezondheid 2004/2005. Hoofddorp/Leiden: TNO; 2007
25. Kemper HCG, Ooijendijk WTM, Stiggelbout M. Consensus over de Nederlandse norm voor gezond bewegen. Tijdschrift voor gezondheidswetenschappen. 2000(78);3:180-183.
26. Kyngas, H. Motivation as a crucial predictor of good compliance in adolescents with rheumatoid arthritis. Int J Nurs Pract. 2002;8:336–341.
27. Scholten L, Willems AM, Grootenhuys MA, Maurice-Stam H, Schuengel C en Last BF. A cognitive behavioral based group intervention for children with a chronic illness and their parents: a multicentre randomized controlled trial. BMC Pediatr. 2011;11:65.

## Bijlage 1 - Zoekstring

Resultaten database literatuurzoektocht op 8 november 2012

Pubmed literatuursearch: 149 hits		
1. Patiëntenpopulatie	2. Aandoening	3. Interventie
child [MeSH]	"arthritis, juvenile rheumatoid" [MeSH]	"self care" [MeSH]
children [tiab]	"juvenile idiopathic arthritis" [tiab]	"health promotion" [tiab]
"disabled children"	"juvenile arthritis" [tiab]	education [tiab]
adolescent [MeSH]	JIA [tiab]	"behavior therapy" [tiab]
		counseling [tiab]
		"occupational therapy" [tiab]
		"self management" [tiab]
		"self efficacy" [tiab]
		self-efficacy [tiab]
		"educational interventions" [tiab]
		empowerment [tiab]
		"coping strategies" [tiab]
		coping [tiab]

De zoektermen van de patiëntenpopulatie (1) werden gekoppeld met OR, de zoektermen van de aandoening (2) ook en de zoektermen van de interventie (3) eveneens. Vervolgens werden deze drie zoekvijvers gekoppeld met AND en werd de database van Pubmed doorzocht.

Cochrane literatuursearch: 20 hits (waarvan 3 duplicaten)		
1. Patiëntenpopulatie	2. Aandoening	3. Interventie
child (MeSH)	"arthritis, juvenile rheumatoid" (MeSH)	"self care" (MeSH)
children	"juvenile idiopathic arthritis"	"health promotion"
"disabled children" (MESH)	"juvenile arthritis"	education
adolescent (MeSH)	JIA	"behavior therapy"
		counseling
		"occupational therapy"
		"self management"
		"self efficacy"
		self-efficacy
		"educational interventions"
		empowerment
		"coping strategies"
		coping

De zoektermen van de patiëntenpopulatie (1) werden gekoppeld met OR, de zoektermen van de aandoening (2) ook en de zoektermen van de interventie (3) eveneens. Vervolgens werden deze drie zoekvijvers gekoppeld met AND en werd de database van Pubmed doorzocht.

<b>Pedro literatuursearch: 16 hits (waarvan 3 duplicaten)</b>		
<b>1. Patiëntenpopulatie</b>	<b>2. Aandoening</b>	<b>3. Interventie</b>
	"arthritis, juvenile rheumatoid" (MeSH)	
	"juvenile idiopathic arthritis"	
	"juvenile arthritis"	

Zoeken op een combinatie van de zoektermen leverde te weinig op. Er is daarom alleen gezocht op publicaties over de aandoening JIA, deze werden handmatig doorzocht. De zoekterm JIA leverde vooral zoekresultaten op met Chinese auteurs, waarna deze zoekterm is komen te vervallen.

<b>Cinahl literatuursearch: 12 hits (waarvan 6 duplicaten)</b>		
<b>1. Patiëntenpopulatie</b>	<b>2. Aandoening</b>	<b>3. Interventie</b>
child [AB]	"arthritis, juvenile rheumatoid" [TI]	"self care" [AB]
children [AB]	"juvenile idiopathic arthritis" [TI]	"health promotion" [AB]
"disabled children" [AB]	"juvenile arthritis" [TI]	education [AB]
adolescent [AB]	JIA [TI]	"behavior therapy" [AB]
		counseling [AB]
		"occupational therapy" [AB]
		"self management" [AB]
		"self efficacy" [AB]
		self-efficacy [AB]
		"educational interventions" [AB]
		empowerment [AB]
		"coping strategies" [AB]
		coping [AB]

Omdat er te veel resultaten werden verkregen (meer dan 1.000) werd de zoekstring beperkt door te vereisen dat er een ziekte-specifieke zoekterm (2) in de titel van de publicatie moest worden genoemd.

De zoektermen van de patiëntenpopulatie (1) werden gekoppeld met OR, de zoektermen van de aandoening (2) ook en de zoektermen van de interventie (3) eveneens. Vervolgens werden deze drie zoekvijvers gekoppeld met AND en werd de database van Pubmed doorzocht.