

University of Groningen

Infants at very high risk of cerebral palsy

Hielkema, Tjitske

IMPORTANT NOTE: You are advised to consult the publisher's version (publisher's PDF) if you wish to cite from it. Please check the document version below.

Document Version

Publisher's PDF, also known as Version of record

Publication date:

2017

[Link to publication in University of Groningen/UMCG research database](#)

Citation for published version (APA):

Hielkema, T. (2017). *Infants at very high risk of cerebral palsy: a challenging population*. Rijksuniversiteit Groningen.

Copyright

Other than for strictly personal use, it is not permitted to download or to forward/distribute the text or part of it without the consent of the author(s) and/or copyright holder(s), unless the work is under an open content license (like Creative Commons).

The publication may also be distributed here under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license. More information can be found on the University of Groningen website: <https://www.rug.nl/library/open-access/self-archiving-pure/taverne-amendment>.

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.

Downloaded from the University of Groningen/UMCG research database (Pure): <http://www.rug.nl/research/portal>. For technical reasons the number of authors shown on this cover page is limited to 10 maximum.

Samenvatting

Veel factoren kunnen de vroege hersenontwikkeling beïnvloeden. Meestal verlopen zwangerschap, geboorte en de periode na de geboorte gelukkig zonder problemen. Een kind ontwikkelt zich, leert lopen, gaat naar school en groeit op tot een zelfstandige volwassene. Soms verloopt deze ontwikkeling echter niet zo vanzelfsprekend. Dit kan komen door problemen tijdens de zwangerschap, rond de geboorte of in de eerste levensmaanden. Hierbij kan worden gedacht aan vroeggeboorte, zuurstofgebrek rond de geboorte, infecties of andere problematiek. Door complicaties voor, tijdens of na de geboorte kan de hersenontwikkeling anders verlopen dan verwacht. Vroege problematiek in de ontwikkeling van de hersenen kan leiden tot cerebrale parese (CP), de meest voorkomende fysieke beperking bij kinderen. CP uit zich door problemen in houding en beweging, meestal in de vorm van spasticiteit. Het gaat vaak gepaard met andere problemen in de ontwikkeling, zoals cognitieve problemen, gedragsproblemen en/of epilepsie. CP kan zich aan een kant van het lichaam uiten (unilateraal), of aan twee kanten (bilateraal). De ernst van de CP en de mate waarin armen en benen zijn aangedaan kan verschillen. Alle kinderen hebben in meer of mindere mate problemen met zich voortbewegen. Doordat het jonge brein in ontwikkeling is, wordt vaak in de loop van de tijd pas duidelijk of een kind wel of niet CP zal ontwikkelen. De meeste kinderen met CP krijgen begeleiding vanuit de kinderrevalidatie. Omdat wordt verondersteld dat de hersenen vroeg in de ontwikkeling het meest vormbaar zijn, is de aanname dat het goed is om zo vroeg mogelijk te starten met interventie. Er is echter nog veel onduidelijkheid over de werkzaamheid en de beste vorm van interventie.

Het hoofddoel van dit proefschrift is het onderzoeken van de effecten van vroege interventie bij kinderen die een zeer hoog risico lopen op het ontwikkelen van CP (hierna 'zeer hoog risico kinderen' genoemd), ofwel door een hersenbeschadiging, ofwel door een klinische uiting van een anders verlopende hersenontwikkeling. Daarnaast beoogt het proefschrift meer zicht te krijgen in:

- Hoe de ontwikkeling van zeer hoog risico kinderen verloopt
- Welke factoren de vroege ontwikkeling van zeer hoog risico kinderen kunnen beïnvloeden
- Hoe de inhoud van kinderfysiotherapie samenhangt met de ontwikkeling van kind en gezin
- Welke ontwikkelingen binnen de kinderfysiotherapie over tijd hebben plaatsgevonden
- De toepassing van motorische testen voor zeer hoog risico kinderen

Deel 1: Factoren die de ontwikkeling van hoog risico kinderen kunnen beïnvloeden

Hoofdstuk 2 geeft een overzicht van de literatuur over motorische en cognitieve uitkomsten van kinderen met een vroege ernstige hersenbeschadiging. De onderzoeken laten zien dat een ernstige hersenbeschadiging duidelijk geassocieerd is met de ontwikkeling van CP. Het overgrote deel (86%) van kinderen met cystevorming in de diepgelegen witte stof van de hersenen (cystische periventriculaire leukomalacie) ontwikkelde CP. Van de kinderen die rond de uitgerekende datum van geboorte een hersenbloeding of –infarct hadden gehad ontwikkelde iets minder dan een derde (30%) CP. Als er sprake was van CP, resulteerde een eenzijdige hersenlaesie vaak in een unilaterale CP en bilaterale hersenlaesies vaak in bilaterale CP. Maar er werd ook gezien dat eenzijdige laesies zich uitten in bilaterale CP en andersom. Cognitieve problemen in de vorm van een duidelijke beperking in leren en toepassen van kennis werden gezien bij 27-50% van de kinderen met een vroege ernstige hersenbeschadiging. Over andere factoren die de ontwikkeling kunnen beïnvloeden werd weinig beschreven. Weinig onderzoeken beschreven specifieke uitkomsten apart voor jongens en meisjes en informatie over sociaaleconomische factoren werd bijna niet gegeven.

Hoofdstuk 3 beschrijft de inhoud en ontwikkelingen over de tijd binnen reguliere kinderfysiotherapie zoals die in Nederland gegeven wordt in twee tijdsperiodes (2003-2005 en 2008-2015). Er worden een aantal ontwikkelingen gezien: het betrekken van gezinnen bij de behandeling neem toe, zowel op het gebied van communicatie als educatief, in de vorm van overbrengen van fysiotherapeutische kennis en handelingen naar ouders. Het betrekken van het gezin is meestal in de vorm van training, feedback geven, informatie uitwisselen en instructies geven. De inhoud van neuromotorische handelingen, zoals faciliteren van bewegingen, sensorische ervaringen geven en het kind uitdagen tot eigen motorische acties, veranderde niet duidelijk in de loop van de jaren. De resultaten laten zien dat theoretische concepten binnen de kinderfysiotherapie gedeeltelijk geïmplementeerd zijn over de tijd.

Deel 2: Vroege interventie bij kinderen met een zeer hoog risico op cerebrale parese

In hoofdstuk 4 worden resultaten beschreven van het Vroegtijdig Interventie Project (VIP). In het VIP-onderzoek zijn kinderen geïnccludeerd met een hoog risico op het ontwikkelen van CP. Een hoog risico op CP werd gebaseerd op de aanwezigheid van duidelijk afwijkende General Movements (GM's) rond de leeftijd van drie maanden. GM's zijn gegeneraliseerde bewegingen van de zuigeling, die leeftijdsspecifieke kenmerken hebben. Duidelijk afwijkende GM's rond de leeftijd van drie maanden betekenen een duidelijk verhoogd

risico op CP. De motorische uitkomsten van deze hoog risico kinderen werden gemeten met de Infant Motor Profile (IMP), waarmee wordt gekeken naar de kwaliteit van spontaan motorisch gedrag. IMP-uitkomsten van de recent ontwikkelde COPCA-interventie (COPing with and Caring for infants with special needs, a family centred programme (Omgaan met en zorgen voor jonge kinderen met specifieke behoeften – een gezinsgericht programma)) werden vergeleken met de controlegroep TIP (Typical Infant Physiotherapy (reguliere kinderfysiotherapie)). Kinderen die aan het onderzoek meededen werden door middel van loting toegewezen aan een van beide interventies (gerandomiseerd vergelijkend onderzoek, RCT). De interventieperiode was van drie tot zes maanden, gerekend vanaf de uitgerekende datum van geboorte van het kind. Uitkomsten voor de kinderen in de COPCA- en de TIP-groep van de RCT waren vergelijkbaar. De inhoud van interventies werd ook geanalyseerd, en na deze analyses bleken bepaalde elementen binnen de interventie gerelateerd aan uitkomsten: enkele COPCA-gerelateerde elementen waren positief geassocieerd met uitkomst en enkele TIP-gerelateerde uitkomsten waren negatief geassocieerd met uitkomst, vooral bij de kinderen die CP ontwikkelden. Hierbij moet gezegd worden dat maar een kwart van de kinderen CP ontwikkelde en de interventie periode van drie maanden kort was.

De bevindingen van het VIP-project leidden tot de opzet van een nieuw onderzoek: het LEARN2MOVE0-2 jaar onderzoek (hoofdstuk 5). De grootste verschillen met het VIP-onderzoek zijn a) kinderen met een nog hoger risico op het ontwikkelen van CP werden geïncludeerd, hoofdzakelijk gebaseerd op ernstige hersenbeschadigingen en b) de interventieperiode was langer: een jaar in plaats van drie maanden. Naast kinduitkomsten werden ook uitkomsten voor het gezin meegenomen.

De resultaten van het L2M0-2 onderzoek zijn beschreven in hoofdstuk 6. In het L2M0-2 onderzoek ontwikkelde meer dan de helft van de kinderen CP. Net als in het VIP-onderzoek werden er in de RCT geen verschillen in uitkomsten gevonden tussen de groep die COPCA ontving en de TIP-groep. In tegenstelling tot het VIP-onderzoek, waren er geen relaties tussen de inhoud van de interventie en de uitkomsten van het kind. In het L2M0-2 onderzoek werden echter ook gezinsuitkomsten meegenomen. Een belangrijke gezinsuitkomst was wel gerelateerd aan de inhoud van interventie: de family empowerment was positief geassocieerd met COPCA-elementen van de interventie.

Deel 3: Het evalueren van grof motorisch functioneren bij jonge kinderen met of met een hoog risico op cerebrale parese

Er bestaat geen 'gouden standaard' voor het in kaart brengen van motorisch functioneren bij jonge kinderen. Meetinstrumenten die vaak gebruikt worden bij kinderen met CP zijn de Gross Motor Function Measure (GMFM, meetinstrument grof motorisch functioneren) en de Gross Motor Function Classification System (GMFCS, classificatiesysteem grof

motorisch functioneren). Beide zijn betrouwbare en valide meetinstrumenten, maar worden vooral toegepast bij kinderen die de diagnose CP hebben, dat wil zeggen vaak vanaf de leeftijd van circa 18-24 maanden. In deel 3 van dit proefschrift wordt het gebruik van deze meetinstrumenten op jongere leeftijd geëvalueerd en worden suggesties voor toepasbaarheid op jonge leeftijd gegeven.

Hoofdstuk 7 geeft aan waar tegenaan werd gelopen bij het afnemen van de GMFM bij jonge kinderen, gebaseerd op ervaringen met de GMFM bij de eerste kinderen die geïncludeerd waren in het L2M0-2 onderzoek. Enkele suggesties voor aanpassing van de GMFM op jonge leeftijd werden opgesteld, onder andere het weglaten van elementen die moeilijk uit te lokken zijn op jonge leeftijd en waarbij het kind instructies op moet volgen. De eerste resultaten van de aangepaste GMFM in het pilot onderzoek lijken erop te wijzen dat ze het daadwerkelijk motorisch functioneren beter in kaart kunnen brengen. Er is echter meer onderzoek nodig om te kijken of deze aanwijzingen ook in grote groepen blijven bestaan en om de betrouwbaarheid, validiteit en responsiviteit van de aangepaste GMFM verder in kaart te brengen.

In hoofdstuk 8 wordt de toepassing van de GMFCS op jonge leeftijd besproken aan de hand van een casus. In de afgelopen jaren neemt het vroeg inzetten van ondersteuning van mobiliteit door middel van (gemotoriseerde) hulpmiddelen toe, ook voor het tweede levensjaar. In de huidige GMFCS wordt bij de beschrijving voor kinderen jonger dan twee jaar nog geen aandacht besteed aan mobiliteitsbevorderende hulpmiddelen. Om deze reden is er in dit hoofdstuk aan de hand van de casus een voorstel gedaan om in de GMFCS voor de kinderen van nul tot twee jaar ook het gebruik van hulpmiddelen voor mobiliteit mee te nemen.

Concluderend wordt er in dit proefschrift gezien dat kinderen met een ernstige hersenbeschadiging een hoog risico lopen op het ontwikkelen van CP en dat dit risico hoger is dan voor de kinderen die alleen klinische tekenen laten zien van een disfunctionerend brein. De inhoud van vroege interventie is veranderd in de loop van de jaren. In het begin van de 21e eeuw werd het COPCA-programma ontwikkeld, gericht op vroege interventie voor kinderen die speciale zorg nodig hebben. In de twee interventiestudies in dit proefschrift hadden kinderen die COPCA of TIP kregen vergelijkbare uitkomsten tijdens en na de interventieperiode. Specifieke elementen van de interventies waren echter wel geassocieerd met de uitkomst: in het VIP-onderzoek met uitkomsten van het kind en in het L2M0-2 onderzoek met gezinsuitkomsten. Het meten van motorische uitkomsten bij hoog risico kinderen is een uitdaging, maar een voorwaarde om effecten van interventie goed te kunnen weergeven. Daarom werden er enkele suggesties gedaan voor aanpassingen op jonge leeftijd van twee veel gebruikte meetinstrumenten: de GMFM en de GMFCS.

Voor toekomstig onderzoek zouden de ontwikkelingen op het gebied van beeldvorming van de hersenen, waarbij vroeg kunnen detecteren, exacter kunnen weergeven van hersenbeschadigingen en beter kunnen voorspellen van uitkomst, waardevolle elementen zijn voor het verbeteren van inzicht in vroege ontwikkeling en effecten van interventie. Kennis over inhoud van interventie is nodig om onderliggende werkingsmechanismen te kunnen begrijpen. Om het functioneren van een kind goed weer te kunnen geven, is het verder ontwikkelen en optimaliseren van meetinstrumenten van belang. Bij kinderen met een ernstige hersenbeschadiging is de mate waarin ontwikkeling te beïnvloeden is mogelijk maar beperkt, terwijl het vaak een grote impact heeft op het gezin. Daarom is het bij het onderzoeken van effecten van vroege interventie niet alleen van belang om uitkomsten van het kind te meten, maar ook gezinsuitkomsten hierbij te betrekken.

