

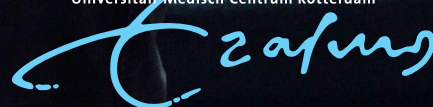


VAN ONTGINNEN NAAR OOGSTEN

15 jaar epidemiologisch
onderzoek bij mensen
met verstandelijke
beperkingen

Mei 2015
Afscheidscollege Prof Dr Heleen Evenhuis
Geneeskunde voor Verstandelijk Gehandicapten
Afdeling Huisartsgeneeskunde
Erasmus MC Rotterdam

Erasmus MC
Universitair Medisch Centrum Rotterdam



Mijnheer de Rector Magnificus, Mijnheer de Decaan, geachte collega's uit de academische wereld, uit de belangenverenigingen van mensen met beperkingen, uit de zorg en uit de daarmee gerelateerde organisaties, beste familie en vrienden, zeer gewaardeerde toehoorders,

Het is mij een eer en een genoegen om hier na 15 jaren leerstoel Geneeskunde voor Verstandelijk Gehandicapten voor u te staan. Dat deze leerstoel heeft kunnen ontstaan, is in sterke mate te danken aan een persoonlijke top-down stimulering in de vorm van een Ontginningssubsidie vanuit het NWO (later ZonMw)-programma Chronisch Zieken. Hierdoor kon een begin gemaakt worden met het overbruggen van de kloof tussen universiteit en zorg in multidisciplinaire werkgroepen en richtlijncommissies en gezamenlijke voorbereiding van wetenschappelijk onderzoek. In diezelfde periode werd de eerste formele internationale uitwisseling geïnitieerd in de vorm van zogenaamde *special interest research groups (SIRG)* in het kader van de International Association for the Scientific Study of Intellectual Disability (IASSID). Nederlandse initiatiefnemers waren Prof Dr Anton Döşen (Psychiatrie bij verstandelijk gehandicapten, Nijmegen) voor de SIRG Mental Health (1993), en ikzelf voor de SIRG Health Issues (1996).

De leerstoel was destijds de eerste in Nederland, maar ook ter wereld, in de lichamelijke of somatische geneeskunde voor mensen met verstandelijke beperkingen. In 2009 is mijn collega Prof Dr Henny van Schroyen Lantman-de Valk benoemd op een tweede leerstoel op dit thema, aan de Radboud Universiteit te Nijmegen, terwijl ook twee of drie leerstoelen op dit gebied zijn gevestigd in het Verenigd Koninkrijk en Australië.

Op het moment van vestiging van de leerstoel aan het Erasmus MC in 2000 was research op het gebied van lichamelijke aandoeningen in deze populatie internationaal nog schaars en incidenteel, en betrof vooral thema's als genetica, psychiatrie, syndroomgebonden problematiek, epilepsie. In de 80-er en 90-er jaren waren door klinische pioniers eerste verkennende studies verricht naar het voorkomen van andere aandoeningen in de populatie: dementie bij mensen met het Down syndroom, oogheelkundige diagnosen, reflux van maagzuur, ouderdomsaandoeningen. Deze pioniersstudies waren van groot belang om de aandacht te vestigen op nieuwe aspecten van de gezondheid van deze mensen, maar de methodologische kwaliteit was nog laag. De leerstoel had als doel, de geneeskunde voor mensen met verstandelijke beperkingen, die destijds nog sterk berustte op *trial and error*, wetenschappelijk te onderbouwen door middel van toegepast onderzoek. Wij hebben ons niet gericht op de bekende thema's waarmee de arts voor verstandelijk gehandicapten (AVG) al veel expertise had opgebouwd: genetica, neurologie, psychiatrie. De keuze viel op drie thema's die geïnspireerd werden door praktijkvragen en in de voorafgaande jaren, mogelijk gemaakt door de Ontginningssubsidie, door mij waren voorbereid : 1. visuele en gehoorstoornissen, 2. voedings- en longproblemen bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen, en 3. veroudering. Omdat dit wetenschappelijk domein in de negentiger jaren dus nog zeer jong was en vrijwel van nul af moest worden vormgegeven en

opgebouwd, is het extra interessant om vandaag te memoreren wat er in die periode tot stand is gekomen.

Het ontginnen in de titel slaat natuurlijk op de Ontginningssubsidieperiode, maar dat ontginnen is in de eerste helft van deze 15 jaren nog stevig doorgegaan. Wat versta ik onder oogsten? Dat nieuwe kennis, producten en inzichten zijn verworven, en dat die 'landen' in de langdurige en de reguliere gezondheidszorg, in opleidingen, bij het publiek en de overheid.

Het is niet mogelijk om alle relevante informatie in drie kwartier te behandelen en alle personen en partijen recht te doen, die een belangrijk aandeel hebben gehad in de opzet van studies, de gegevensverzameling en het ontwikkelen van nieuwe inzichten. Daarom heb ik voor elke onderzoekslijn een samenvattende bijlage geschreven bij de gedrukte tekst, die u straks kunt meenemen (Bijlagen 1-3).

Voor vandaag heb ik, in overleg met de vakgroep, besloten de volgende boodschappen over het voetlicht te brengen, en met voorbeelden te illustreren:

1. Vijftien jaar wetenschappelijk onderzoek heeft een sterke onderbouwing geleverd voor de noodzaak van specialisten in de gezondheidszorg voor mensen met verstandelijke beperkingen.
2. Hun gezondheidsproblemen zijn voor een groot deel specifiek en multipel, en leiden tot achteruitgang van zelfstandigheid en toename van zorgbehoefte op veel te jonge leeftijd.
3. Om hierin verandering te brengen is gericht beleid nodig voor het beroepsonderwijs, de gespecialiseerde langdurige zorg, de ondersteuning van de eerste lijn en het gemeentelijk domein.

Vijftien jaar wetenschappelijk onderzoek heeft een sterke onderbouwing geleverd voor de noodzaak van specialisten in de gezondheidszorg voor mensen met verstandelijke beperkingen.

Hoe was de situatie vóór 2000? De KNMG ondersteunde in 1995 het verzoek van de Nederlandse Vereniging van Artsen voor Verstandelijk Gehandicapten (NVAVG) om erkenning van het specialisme. De KNMG deed dit op basis van het aantal artsen (ca. 200), het feit dat wij bezig waren met curriculumontwikkeling voor de specialistische opleiding, en het feit van die Ontginningssubsidie: als NWO dit als een apart wetenschappelijk domein beschouwde, moest het wel zo zijn. Zowel de AVGs als de paramedische disciplines en de gedragsdeskundigen werkten echter nog grotendeels *experience-based*. Ieder gebruikte zijn eigen diagnostische methoden en protocollen en ieder had zijn eigen sterke punten en blinde vlekken. Het veld stond huiverig tegenover wetenschappelijk onderzoek en van *evidence-based* had nog niemand gehoord. Het specialisme ‘arts voor verstandelijk

gehandicapten' (AVG) werd in 2000 door minister Borst erkend en de opleiding startte tegelijkertijd met de vestiging van de leerstoel in het Erasmus MC.

Welke onderbouwing van het vak heeft het onderzoek sindsdien opgeleverd?

- Onderbouwing van praktijkervaringen en van de eerste, *experience-based* richtlijnen door kwantificering van risico's en onderliggende oorzaken, en tonen van blinde vlekken
- Toepasbare en gevalideerde diagnostische methoden
- Identificatie van nieuwe risico's
- De gezondheidsproblemen zijn in sterke mate specifiek en multipel, en leiden op veel te jonge leeftijd tot achteruitgang van zelfstandigheid en toename van zorgbehoefte

Kwantificering van risico's en blinde vlekken

Een voorbeeld wordt in de tabel gegeven voor zintuigstoornissen.

Prevalenties van visuele en gehoorstoornissen (↑ = hoger dan in de algemene bevolking)

	Geëxtrapoleerde prevalenties bij 1598 18-plussers met verstandelijke beperkingen	Gemiste diagnoses in de groep met afwijkingen
Slechtziendheid	14%↑	43%
Blindheid	6%↑	36%
Bril nodig	59%	49%
Leesbril nodig	55%	56%
Strabisme (scheelstand)	42%↑	
Cataract (staar)	13%↑	
Slechthorendheid		
• licht	30%↑	48%
• matig tot ernstig	15%	
	15%↑	
Dubbele zintuiglijke beperking		
< 50 jaar	5%↑	
≥ 50 jaar	3%↑	88%
	11%↑	

Splunder et al, 2003, 2004, 2006; Meuwese-Jongheugd et al, 2006, 2008; Vaal et al, 2007

Door een multidisciplinaire NVAVG-richtlijncommissie werd in 2006 vastgesteld, dat hiermee de bestaande diagnostische richtlijn voor visuele stoornissen voldoende was onderbouwd (NVAVG, 1997). Dat er geen revisie kwam, kwam omdat de commissie geen consensus bereikte over wie verantwoordelijk is voor screening.

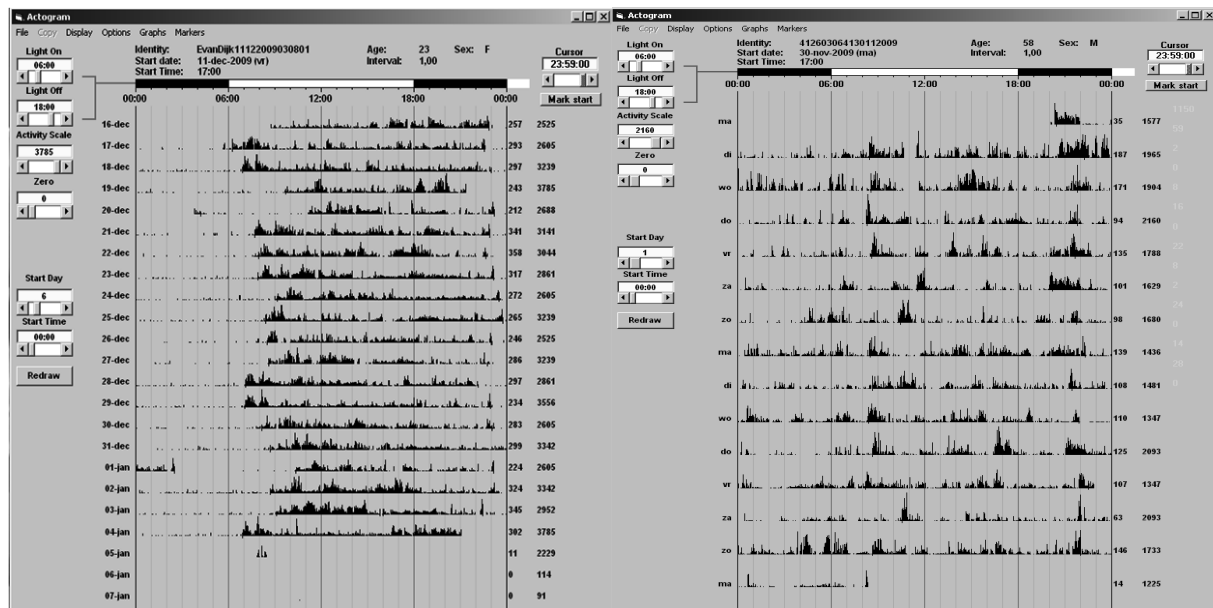
Toepasbare en gevalideerde diagnostische methoden

Wij hebben in elke onderzoekslijn toepasbare *diagnostische methoden* geselecteerd en geïntroduceerd, zo nodig na aanpassing en validering. Geïntroduceerd zijn bijvoorbeeld bestaande maar in de zorg nog onbekende methoden voor onderzoek van het gezicht en gehoor (NVAVG, 1995, 1997), de longfunctie (Mulder et al, in voorbereiding), slaap-waakritme (Wouw et al, 2013), lichamelijke activiteit en fitheid (Hilgenkamp et al, 2012a,b) , slikken (Calis et al, 2008; Bastiaanse et al, ingezonden). Vertaald uit het Engels en gevalideerd zijn screenings-vragenlijsten voor depressie en angst (Hermans et al, 2011, 2012a); aangepast zijn de lijst voor *life events* (Hermans et al, 2012b), en methoden om de lichaamssamenstelling (voedingstoestand) en het energieverbruik te meten bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen (Rieken et al, 2011). Dit is bij uitstek iets voor promotie-onderzoek, omdat het werk methodologische vaardigheden vereist en zeer tijdrovend is. Nieuw ontwikkeld zijn de Fluisterkaart voor gehoorscreening (Evenhuis et al, 2004) en een objectieve methode om snel bij jonge kinderen en kinderen in risicogroepen (cerebrale) visuele functies te meten (Boot et al, 2012a,b, 2013). Dit laatste is gebeurd in een samenwerking met Neurowetenschappen (Prof Hans van der Steen) en wordt door mij beschouwd als één van onze belangrijke vernieuwingen. Overigens is nog heel wat meer onderzoek nodig voordat de methodiek breed klinisch bruikbaar zal zijn.

Identificatie van nieuwe risico's

Het eerste voorbeeld hiervan komt niet uit óns onderzoek maar uit dat van AVG Gerda de Kuijper, die promotie-onderzoek heeft verricht naar de effecten van het stoppen van de veel voorgeschreven antipsychotica (De Kuijper et al, 2013, 2014). Deze medicatie wordt veel voorgeschreven voor ernstige gedragsproblemen, waarvoor het niet bedoeld is, en leidt tot een verhoogd risico op obesitas, hoog cholesterol en bloedsuiker. Dit risico was overigens in de psychiatrie al sinds de 90-er jaren bekend, maar tot de gehandicaptenzorg was het nog niet doorgedrongen. Gerda heeft het in één klap op de kaart gezet, en veel AVGs zijn direkt begonnen het gebruik te verminderen. Een onverwachte bevinding uit ons eigen onderzoek bij ouderen was een chronische verstoring van het circadiaan rust-activiteitsritme (Maaskant et al, 2013), waarvan een extreem voorbeeld wordt getoond in de figuur.

Circadiaan rust-activiteitsritme, gemeten via beweging (Actiwatch)



normaal ritme

gefragmenteerd ritme

Een chronisch verstoord circadiaan ritme leidt tot een verhoogd risico op obesitas en diabetes, en kan mede de oorzaak kunnen zijn van het door ons gevonden vijfmaal verhoogde risico op depressie bij 50-plussers (Hermans et al, 2013). Dit is een ander soort verstoring dan die door ploegendiensten en *jetlags*, waar een verschuiving van het ritme optreedt. Wij willen dus graag nader onderzoeken of een algemeen gefragmenteerd circadiaan ritme dezelfde gezondheidseffecten heeft als verschuiving, of misschien andere.

De gezondheidsproblemen zijn in sterke mate specifiek en multipel, en leiden op veel te jonge leeftijd tot achteruitgang van zelfstandigheid en toename van zorgbehoefte

Wat is specifiek gezien vanuit de huisarts gezien?

- De afwijkende of ontbrekende presentatie van klachten
- De omgang met een cliëntsysteem en de afhankelijkheid van - op gezondheidsgebied - onvoldoende deskundige professionele woonbegeleiders
- syndromen
- vroege motorische en zintuiglijke beperkingen en aandoeningen als epilepsie
- andere risico's
- multimorbiditeit en polyfarmacie met een ander karakter dan bij hoogbejaarden
- leefstijlproblematiek
- geestelijke gezondheidsproblematiek, met name gedragsproblemen

- gewone aandoeningen kunnen ongewone oorzaken hebben
- sterk vervroegd optreden van kwetsbaarheid, leidend tot vroege achteruitgang van de gezondheid en zelfstandigheid en vroege behoefte aan 24-uurszorg

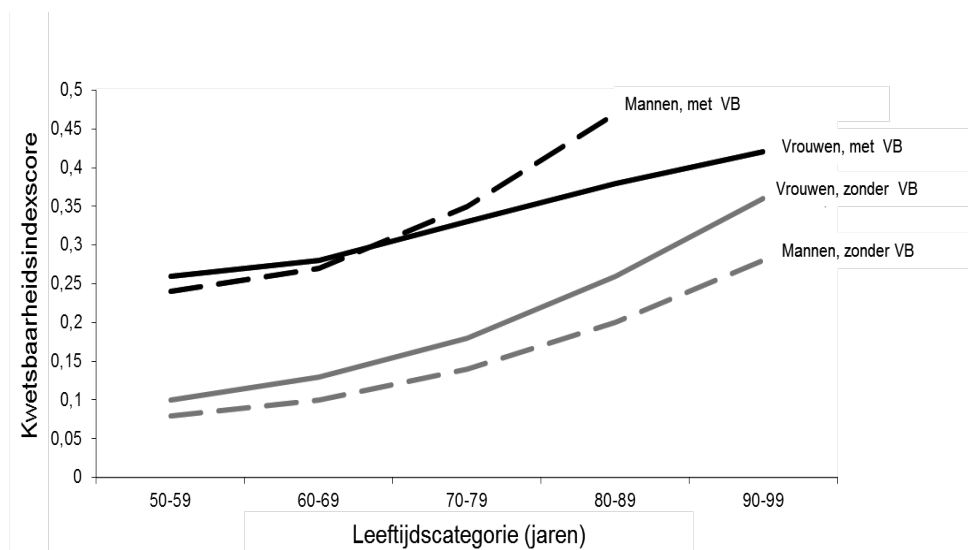
Wat is specifiek gezien vanuit de tweede lijns specialistische zorg?

- Voor kinderartsen: kinderen met gecompliceerde problematiek
- Voor psychiaters: gedragsproblemen

Ik begin aan het eind: kwetsbare ouderen. Dit is een in de geriatrie veelgebruikte term om ouderen aan te duiden met een verhoogd risico op verlies van gezondheid, mobiliteit en zelfstandigheid binnen afzienbare tijd, als gevolg van verminderde fysiologische reserves en een verhoogde gevoeligheid voor verstorende invloeden.

De figuur laat zien, dat vijftigers met verstandelijke beperkingen gemiddeld al even kwetsbaar zijn als zeventig- tot tachtigers in de algemene bevolking (Schoufour et al, 2013).

Kwetsbaarheid naar leeftijd bij mensen met en zonder verstandelijke beperking (VB)

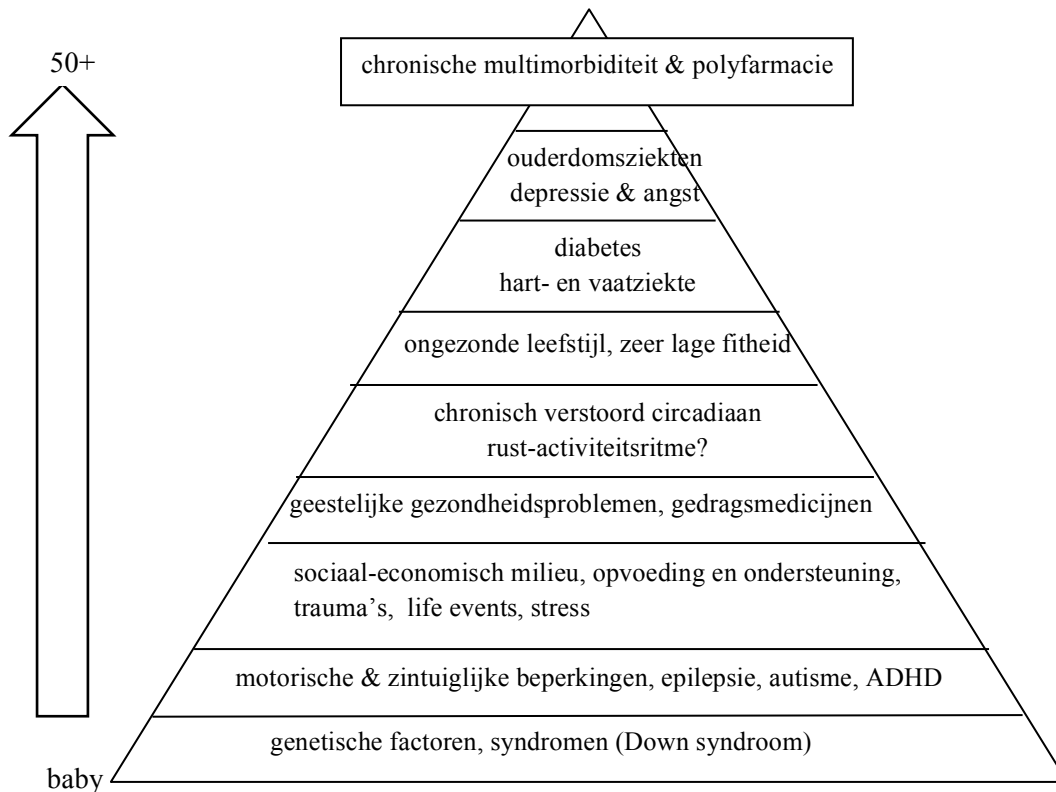


Wij hebben in longitudinaal onderzoek aangetoond, dat kwetsbaarheid bij hen, net als in de algemene bevolking, achteruitgang van de gezondheid, mobiliteit en zelfstandigheid binnen 3 jaar voorspelt (Schoufour et al, 2014a; 2015), evenals een toename van de zorgzwaarte (ZZP) (Schoufour et al, 2014b).

Waar komt die zeer vroege kwetsbaarheid vandaan?

In de klinische praktijk en uit het onderzoek is duidelijk geworden, dat zich bij mensen met verstandelijke beperkingen gedurende de levensloop steeds meer factoren kunnen opstapelen die ongunstig zijn voor de gezondheid.

Model van opstapeling van voor de gezondheid ongunstige factoren gedurende de levensloop (Evenhuis, 2014)



Niet alleen de lichamelijke, maar ook de geestelijke gezondheid is vanaf jonge leeftijd bedreigd, zoals Prof Hans Koot en zijn groep (Ontwikkelingspsychologie, VU) hebben aangetoond in epidemiologisch onderzoek bij 1041 kinderen in het speciaal onderwijs (Dekker & Koot, 2002a,b; Dekker et al 2003a,b; Douma et al, 2007). Vooral 'gedragsproblemen' zijn de oorzaak van de grote hoeveelheid gedragsmedicijnen die verstandelijk beperkte cliënten van zorg en ondersteuning, veelal langdurig, krijgen voorgeschreven, met alle bijwerkingen van dien (De Kuijper et al, 2010). Huisartsen zowel als psychiaters verwijzen patiënten met gedragsproblemen voor nadere diagnostiek en behandeling dan ook graag door naar één van de 81 AVG-poli's. Dit is zelfs de meest frequente indicatie voor verwijzing.

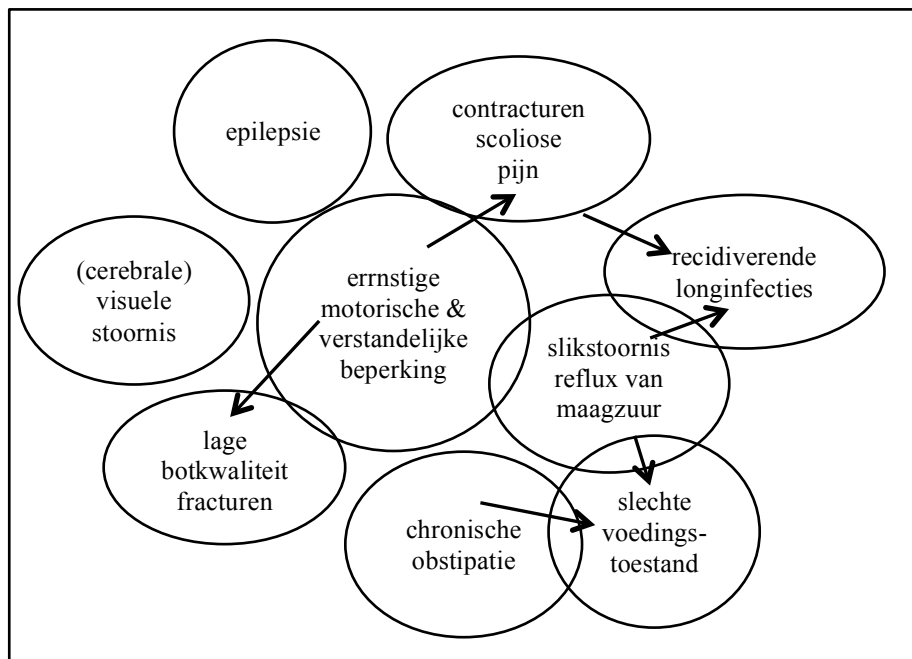
De figuur laat zien dat deze mensen gemiddeld altijd kwetsbaarder zullen zijn dan andere mensen, maar ook dat er in alle levensfasen aanknopingspunten zijn voor preventie en interventie, dus voor uitstel van kwetsbaarheid.

Ik zal als voorbeelden iets dieper ingaan op geclusterde comorbiditeit, ketenzorg, de leefstijlproblematiek, het cluster hart- en vaatziekte, en multimorbiditeit en polyfarmacie.

Geclusterde comorbiditeit

Als voorbeeld van een cluster dat multidisciplinaire diagnostiek en interventies vraagt, toon ik in de figuur het cluster bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen.

Cluster van comorbiditeit bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen



Veugeliers et al, 2010; Calis et al, 2008; Rieken et al, 2011; Mergler et al, ingezonden

Gesteld kan worden, dat de kinderarts er bij voorbaat vanuit moet gaan dat kinderen met ernstige meervoudige beperkingen, naast hun motorische en visuele beperkingen en de gevolgen daarvan (vergroeiingen, lage botkwaliteit) en de epilepsie, al vanaf zeer jonge leeftijd last hebben van slikproblemen, reflux van maagzuur, voedingsproblemen en chronische obstipatie, leidend tot een sterk verhoogd risico op (recidiverende) longontstekingen. Er is kennelijk vaak sprake van neurologische afwijkingen in het motorisch functioneren van het hele systeem van mond, keel, slokdarm, maag en darmen.

Overigens is dit cluster van toepassing op alle mensen met ernstige cerebrale paresen (verlammingen). Bij de hier behandelde, ernstigst gehandicapte groep treden alle aandoeningen al op zeer jonge leeftijd op, terwijl dat bij andere groepen geleidelijker kan gebeuren.

Dit cluster is een voorbeeld van multimorbiditeit waarvoor direct multidisciplinaire *evidence-based* richtlijnontwikkeling en zorgverbeteringsbeleid gestart kunnen worden, en waarbij, behalve

kinderartsen, vooral gespecialiseerde logopedisten en diëtisten nodig zijn. Hetzelfde geldt voor de training en ondersteuning van motorische vaardigheden door fysiotherapeuten.

Ketenzorg

Een voorbeeld van ketenzorg is die voor zintuigstoornissen.

De zorgketen voor visuele en gehoorstoornissen bij mensen met verstandelijke beperkingen

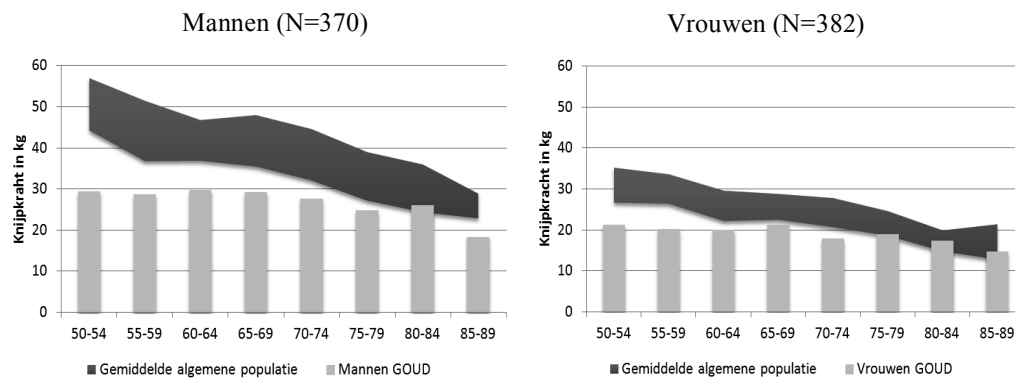


De onderdelen van deze keten zijn al vele jaren bekend en wetenschappelijk onderbouwd, en berusten, buiten de verstandelijk gehandicaptenzorg, bij ervaren tweede- en derdelijns gezondheidszorgpartijen. Op basis hiervan hebben wij, in de beginjaren van de leerstoel, twee interventiestudies uitgevoerd, waarvan wij geleerd hebben dat implementatie van nieuwe dingen in de langdurige zorg niet zomaar lukt (Meuwese-Jongejeugd et al, 2005; Evenhuis & Sjoukes, 2008). Specialisatie vereist dus ook nieuwe randvoorwaarden in een flexibele zorgomgeving. In later onderzoek hebben wij dat dus, samen met het zorgmanagement, anders aangepakt.

Leefstijlproblematiek

Ter illustratie laat ik u in de figuur één uitkomst zien van het onderzoek dat door Thessa Hilgenkamp binnen de Gezond Ouder-studie is opgezet (Hilgenkamp et al, 2012).

Spierkracht van 50-plussers met verstandelijke beperkingen, vergeleken met de algemene populatie



Een vergelijkbaar beeld werd vastgesteld bij de andere onderzochte aspecten van fitheid.

Omdat in dit thema meerdere fundamentele vragen gesteld kunnen worden, zal Thessa haar onderzoek uitbouwen tot een structurele onderzoekslijn. Om te beginnen gaat zij als Marie Curie fellow een jaar in Chicago onderzoek doen naar inspanningsfysiologische processen die in deze doelgroep mogelijk veranderd zijn.

Dit thema heeft vorig jaar in de pers nogal wat aandacht gekregen: het moest toch gemakkelijk zijn om deze mensen meer te laten bewegen dan ze nu kennelijk deden. Marieke van Schijndel-Speet heeft aangetoond, dat dat niet zo eenvoudig is als het lijkt. Zij heeft een fitheidsprogramma voor de dagbesteding ontwikkeld (Schijndel-Speet et al, 2013). Innovatief ten opzichte van eerder voor de doelgroep ontwikkelde programma's voor bewegen en fitheid was, dat gericht gebruik gemaakt werd van bij mensen met verstandelijke beperkingen werkzame gedragsveranderings-strategieën en dat zowel het proces als de uitkomsten (in een RCT) zijn geëvalueerd (Schijndel-Speet et al, 2014a,b). De gedragsveranderings-strategieën waren gebaseerd op interviews met cliënten en op de wetenschappelijke literatuur, maar ook op interviews met bewegingsdeskundigen en activiteitenbegeleiders. Deze professionals werden specifiek geschoold en waren nauw betrokken bij de uitwerking van een educatief en een fitheidsprogramma, terwijl alle randvoorwaarden werden geregeld door de managers dagbesteding van de drie zorgorganisaties. Dit programma werd 8 maanden lang succesvol uitgevoerd en bleek toen eerste positieve effecten gehad te hebben op fitheids- en gezondheidsmaten (Schijndel-Speet et al, ingezonden).

Cluster 'hart- en vaatziekte'

Dit cluster is in de algemene bevolking al jaren geleden geïdentificeerd en fundamenteel doorgrond; dit heeft geleid tot richtlijnen, zoals de standaard 'Cardiovasculair Risicomanagement' van het Nederlands Huisartsen Genootschap (NHG). Huisartsen hebben dus veel ervaring met dit cluster. Diabetes, obesitas en perifere atherosclerose bleken bij 50-plussers met verstandelijke beperkingen meer voor te komen dan bij andere 50-plussers.

Prevalenties van risicofactoren voor hart- en vaatziekte (↑ = hoger dan in de algemene 50+ bevolking)

Obesitas (middelomtrek) ¹	44%↑ (vrouwen)
Obesitas (BMI)	26%↑ (vrouwen)
Hoge bloeddruk ^{2,3}	49%
Hoog cholesterol	22% ↓
Diabetes	13% ↑ (vrouwen)
Metabool syndroom	36%
Perifere atherosklerose ^{4,5}	21%↑

1. Winter et al, 2012a; 2. Winter et al, 2012b; 3. RIVM, 2011; 4. Winter et al, 2013; 5. Zaal-Schuller et al, 2015

Naast de ongezonde leefstijl en zeer lage fitheid, speelt met name het hoge antipsychoticagebruik in deze groep een grote rol in het ontstaan van obesitas en diabetes (Kuijper et al, 2010;2013;2014). Daarnaast zou dus het chronisch verstoorde circadiaan rust-activiteitsritme een rol kunnen spelen. Hieruit blijkt dat het cluster ‘hart- en vaatziekte’ in deze populatie bijzondere diagnostiek vereist, terwijl ook de interventie een ander karakter heeft dan in de huisartspraktijk: het verbeteren van het circadiaan ritme en het staken van antipsychotica vergen in deze populatie specialistische expertise (Winter et al, 2014). Dat geldt overigens, zoals gebleken is uit het onderzoek van Marieke van Schijndel-Speet, evenzeer voor het verbeteren van de fitheid en het trainen van de spieren. Nader onderzoek is nog nodig voordat een *evidence-based* samengestelde interventie kan worden ingevoerd.

Multimorbiditeit en polyfarmacie

Vijftig-plussers met verstandelijke beperkingen zijn qua multimorbiditeit en polyfarmacie te vergelijken met de Nederlandse verpleeghuisbewoners: 47% heeft 4 of meer chronische ziekten en 40% gebruikt permanent 5 of meer medicijnen. Het karakter hiervan is echter merendeels anders dan bij kwetsbare ouderen in de algemene populatie (Hermans & Evenhuis, 2014).

Om hierin verandering te brengen is gericht beleid nodig voor het beroepsonderwijs, de gespecialiseerde langdurige zorg, de ondersteuning van de eerste lijn en het gemeentelijk domein

Gedurende de achterliggende jaren is het 'landen' geleidelijk op gang gekomen. De bevindingen van het onderzoek naar visuele en gehoorstoornissen heeft vooral geleid tot verbetering van de dienstverlening door de gespecialiseerde organisaties op de gebieden van visuele en auditieve stoornissen (Bokken & Evenhuis, 2009) en zijn een vast blok geworden in de AVG-opleiding. In de vernieuwde Jeugdgezondheidszorg (JGZ)-richtlijn ‘Opsporing visuele stoornissen 0-19 jaar’ wordt

specifiek aandacht besteed aan de sceening van kinderen met verstandelijke beperkingen (JGZ, 2010). Het nieuw opgerichte Regionale Netwerk voor kinderen met een ontwikkelingsstoornis Zuidwest Nederland streeft ernaar, in november 2015 een gezamenlijk Webboek Zorg voor Kinderen met Ernstige Meervoudige Beperkingen te lanceren. Ouderverenigingen, zoals de Bond voor Ouders van Spastische Kinderen (BOSK), zijn steeds zeer betrokken geweest bij ons onderzoek. Het echte landen in de langdurige zorg kwam echter pas op gang in de consortiumperiode. De attitude ten aanzien van wetenschappelijk onderzoek is bij managers radicaal veranderd in vergelijking met de situatie in 2000. Daar heeft de AVG-opleiding een niet te onderschatten rol in gespeeld. Vanwege het pionierskarakter van het specialisme is wetenschappelijke vorming een centraal onderdeel van het curriculum. Zo moet in groepjes een verplicht volledig, patiëntgebonden leeronderzoek worden verricht (Bijlage 4). Dit wetenschappelijk onderwijs heeft bijgedragen aan een meer kritisch-analytische attitude van de beroepsgroep (Evenhuis & Penning, 2009). Maar de jaarlijks voor ondertekening langskomende leeronderzoeken hebben ook bij bestuurders de ogen geopend voor het belang van toegepast onderzoek in hun organisatie. Eigenlijk zijn de AVGs-in-opleiding dus al 15 jaar lang de belangrijkste ambassadeurs voor onderzoek in de zorg.

Ik ben verder tot de conclusie gekomen dat zorgorganisaties pas echt gaan vernieuwen, als ze eerst fors in het onderzoek hebben geïnvesteerd. Dat gold eerst voor de zintuigorganisaties en nu voor het GOUD-consortium. Het idee van *matchen* is dus een effectief idee. Het vernieuwen geldt niet alleen voor de introductie van de nieuwe kennis en producten in de eigen organisatie, maar ook voor onderzoeks- en kennisinfrastructuren, project- en verandermanagement met goed geregelde randvoorwaarden, en gezamenlijk nadenken over hoe je al die betrokken partijen: cliënten, ouders, woonbegeleiders, behandelaars, met hun verschillende belangen, gemotiveerd krijgt voor nieuwe dingen. Samenwerking van verschillende zorgorganisaties, zoals wij doen in het GOUD-consortium, heeft dan naar mijn mening meerwaarde: verschillende bestuurlijke visies, verschillende structuren, verschillende oplossingen leiden tot interessante en stimulerende uitwisselingen. In zware tijden werd niet afgehaakt. Voorwaarde is dan wel, dat de deelnemende organisaties op ongeveer hetzelfde ontwikkelingsniveau zitten.

Omdat veel mensen met verstandelijke beperkingen min of meer afhankelijk zijn van het ‘systeem’ om hen heen van familie, woonbegeleiders, activiteitenbegeleiders en meerdere behandelende disciplines, kunnen dus gecoördineerde inspanningen nodig zijn om die zorg blijvend en doelmatig te verbeteren. Dit geldt voor de zorg die nu valt onder de Wet Langdurige Zorg, maar zeker ook voor de zorg in het gemeentelijk domein.

Uit de uitkomsten van alle studies werd duidelijk, hoezeer woonbegeleiders een centrale rol spelen in het goed verlopen van onderzoek en in zorgverbetering. Dit geldt evenzeer voor woonbegeleiders in groepshuizen die nu onder de Wet Maatschappelijke Zorgverlening (WMO) vallen, of zelfs sterker, nu

zij niet meer kunnen deelnemen aan de nascholingen in de langdurige zorg. Mijn conclusie is, dat veel problemen opgelost zullen zijn, wanneer woonbegeleiders in hun MBO en HBO beroepsopleiding niet langer alleen geschoold worden in orthopedagogische aspecten, maar ook in gezondheidsaspecten. In de nieuwe door de VGN samen met werkgevers en vakbond ontwikkelde competentieprofielen voor verzorgenden in de gehandicaptenzorg, die met ingang van het komende curriculum zullen gelden, is nu ook het thema 'gezondheid' expliciet opgenomen. Dit vergt nog concrete invulling, waarvoor wij graag voorstellen zullen doen.

Wanneer daarnaast de destijds door het Bouwcollege opgestelde technische eisen aan verlichting en akoestiek verplicht gesteld zouden worden voor elke woon- en werkruimte waar meerdere mensen met verstandelijke beperkingen samen zijn, is de zorgketen voor zintuigstoornissen grotendeels rond en hoeft daar geen zorgverzekeringsgeld meer naar toe.

Voor behandelaars in de gehandicaptenzorg én de eerste lijn staat *evidence-based* risicomanagement centraal, dat vaak een multidisciplinaire aanpak zal vereisen, deels specialistische kenmerken kan hebben en ook eisen aan woonbegeleiders en de fysieke leefomgeving kan omvatten.

Het zal u inmiddels duidelijk zijn dat, na de transitie van het grootste deel van de zorg naar de gemeenten, specialistische ondersteuning voor iedereen beschikbaar moet zijn. Dit vergt een zodanige financieringsstructuur, dat gespecialiseerde behandelaars via de (dan multidisciplinaire) AVG-poli's ondersteuning kunnen bieden, maar ook in kinderpoli's, de geestelijke gezondheidszorg, of de eigen praktijk. Voldoende AVG-poli's met een optimale kwaliteit zullen dus nodig zijn om regionaal de reguliere gezondheidszorg en wijkzorg te ondersteunen. Hier kunnen tevens gestructureerde data verzameld worden als basis voor wetenschappelijk onderzoek. Dit vereist een heroriëntatie van alle AVGs, een nieuwe schatting van het benodigd aantal AVGs en indien nodig vergroting van het opleidingsaanbod. Formele afstemming met belendende medische disciplines, met name huisartsen, kinderartsen, ouderengeneeskundigen en psychiaters is van groot belang.

Versnelde professionalisering is dus geboden van de gespecialiseerde paramedische en gedragskundige behandel disciplines, door middel van verwerven van *evidence*, richtlijnontwikkeling en structurele deskundigheidsbevordering, gevolgd door formele erkenning als specialist. Hoewel de professionalisering van de AVG het verst is, blijft ook daar de richtlijnontwikkeling achter door gebrek aan financiële middelen voor een gepromoveerde bureaumedewerker die e.e.a. coördineert en voorbereidt (systematische reviews).

Verder is het aan te bevelen dat verzorgenden of verplegenden met specialistische expertise rond mensen met verstandelijke beperkingen, onderdeel gaan uitmaken van de wijkteams.

Een aanbod van aangepaste voorzieningen voor sport, beweging en fitness is de verantwoordelijkheid van gemeenten en gemeentelijke sportorganisaties, indien nodig geadviseerd door gespecialiseerde bewegingsdeskundigen in de zorg. Het is ook denkbaar dat educatie, leefstijladvies en fitheidstraining worden aangeboden in de multidisciplinaire poli's.

Prioriteiten voor onderzoek

Naar mijn mening heeft alles wat tot vermindering en uitstel van kwetsbaarheid kan bijdragen, prioriteit bij verdere inspanningen voor kennisvermeerdering en zorgverbetering, niet alleen in klinische disciplines.

Zelf richten wij ons in de eerste plaats op een samengestelde interventie voor diabetes en hart- en vaatziekte. Binnen het GOUD-consortium bestuderen wij daartoe in de tweede fase eerst een aantal onderliggende vraagstellingen rond verbetering van fitheid (Dr Alyt Oppewal) en, in afstemming met Gerda de Kuijper, rond antipsychoticagebruik. Zorgorganisatie Middin te Rijswijk heeft het thema 'Circadiaan ritme, licht en gezondheid' geadopteerd. Dit is een samenwerking met Prof Alex Rosemann (Built Environment, TU Eindhoven).

Dr Thessa Hilgenkamp is dus aan de slag met het uitbouwen van haar lijn 'Lichamelijke activiteit & Fitheid', terwijl Dr Heidi Hermans binnen het GOUD consortium een RCT leidt naar de effecten van lichtlamptherapie op depressie (en circadiaan ritme).

Vrij recent is in het Erasmus MC expertisecentrum ENCORE naast de kinderpoli ook een volwassenenpoli gestart, waar poliklinische zorg wordt geboden en wetenschappelijk geëvalueerd bij volwassenen met verschillende syndromen (Angelman syndroom, neurofibromatose 1, tubereuze sklerose, structurele hersenafwijkingen). In deze poli, maar ook in andere syndroompoli's in het land, werken gepromoveerde AVGs. Hoewel wij op dit moment geen ruimte hebben voor nóg een onderzoekslijn, is recent door Dr Dederieke Festen een overleggroep van deze 'syndroom-AVGs' gestart, met als doel eerste afspraken over gestructureerde dataverzameling.

Gedragsproblemen vormen een eigen cluster van oorzaken, diagnostiek, behandeling en advisering, dat nu nog voornamelijk is gebaseerd op praktische ervaring van AVGs en gedragskundigen. Omdat geen enkele Nederlandse psychiatrische vakgroep zich daar momenteel exclusief mee bezighoudt, hebben wij besloten ons niet langer te beperken tot de lichamelijke gezondheid. De leeronderzoeken in de AVG-opleiding zullen voorlopig alle op de geestelijke gezondheid gericht zijn; dit geeft tevens de gelegenheid diagnostische methoden te evalueren en een gezamenlijk databestand op te bouwen. Verder bereiden wij in samenwerking met Dr Gerda de Kuijper, het Centrum voor Verstandelijke Beperking en Psychiatrie van GGZ Drenthe, en de afdeling Psychiatrie van het UMC Groningen, een onderzoeksconsortium 'Geestelijke gezondheid en verstandelijke beperking' voor, dat

zich vooral zal bezighouden met longitudinaal onderzoek. Andere wetenschappelijke disciplines zijn welkom om zich met eigen deelvragen aan te sluiten.

Eén van de doelen van het nieuwe ZonMw Nationaal Programma Gehandicapten: Gewoon Bijzonder, is de ontwikkeling van een zogenaamde Minimale Dataset (MDS): een basisset van gegevens die door zorgaanbieders moeten worden verzameld ten behoeve van zorgevaluatie en zorgverbetering, wetenschappelijk onderzoek, en beleid. Als deze dataset gaat bestaan uit enerzijds enkele belangrijke uitkomstmaten (zoals zelfstandigheid, kwaliteit van leven, zorgzwaarte, kwetsbaarheid, ziekenhuisopnamen) en anderzijds uit valide centrale diagnostische parameters, kunnen daaraan door behandelaars protocollen worden gekoppeld voor verdere diagnostiek, behandeling en effectevaluatie. Met name voor longitudinale evaluatie en onderzoek zal dit veel tijd en inspanning schelen van zorgmedewerkers en onderzoekers en leiden tot minder ontbrekende gegevens. De overheid hecht veel belang aan evaluatie van de transitie naar het gemeentelijk domein. Het is daarom van groot belang dat de minimale dataset ook daar verzameld wordt, inclusief centrale gezondheidsmaten. Het vergt creativiteit om dit zo vorm te geven, dat het voor huisartsen en de overige eerste lijn geen extra belasting gaat vormen.

Dankwoord

Dames en heren,

Ik begon 15 jaar geleden aan deze klus met alleen 27 jaar klinische ervaring in de zorg en een ‘buitenpromotie’ achter de rug, zonder enige kennis van het universitair reilen en zeilen. Op de schouders van decanen, collega-hoogleraren en vele klinisch specialisten en andere experts hebben wij onze eerste studies goed opgezet en min of meer tot een goed einde gebracht. Ik kan ze onmogelijk allemaal opnoemen; dat doe ik in de Bijlagen bij de gedrukte tekst.

Hier beperk ik me tot enkele bijzondere begeleiders op deze tocht.

- De decanen Prof Karel Verwoerd, die mij hartelijk aanstelde, Prof Paul van der Maas, die mij zetjes gaf om in de goede richting te gaan en van wie ik veel heb geleerd, en Prof Huib Pols, die houdt van peper-in-de-kont; toen hij ineens begon met prijzen, schrok ik daar weer van. Prof Jaap Verweij had de ondankbare taak om een oplossing te vinden voor een vakgroep waarvoor ineens geen budget meer bleek gereserveerd.
- De hoofden en collega-hoogleraren van Huisartsgeneeskunde, Prof Siep Thomas, Prof Patrick Bindels, Prof Bart Koes, Prof Sita Bierman, en onze zorgvuldige administrateur René Suurland.
- Daarna dank ik eerst Dr Corine Penning, even oud als mijn jongste zoon, die mij vanaf 2001 als postdoc en later UD heeft ondersteund, gecorrigeerd en onderwezen. Zij wist hoe een

vakgroep functioneert, bewaakte de methodologische kwaliteit en leidde de onderzoekslijn ‘Kinderen met ernstige meervoudige beperkingen’. Tevens heeft ze samen met mij het wetenschappelijk onderwijs in de AVG-opleiding vormgegeven en jaarlijks vernieuwd.

- In de zintuiglijn mede-promotoren en copromotoren Prof Jan Sytze Stilma, Prof Hans Koot, Prof Aart Kooijman, Dr Bert van Zanten, Dr Hans Verschuure, Prof Hans van der Steen, Dr Johan Pel, Ir Lau Nijs en Dr Peter Stiers. De collega's van Bartiméus, Effatha en het Instituut voor Doven. Laura Nagtzaam, Marianne Vink, Carla Weerdenburg. En Michiel Vermaak die het Tobii apparaat ontdekte en hielp met de eerste software.
- In de lijn voor kinderen met ernstige meervoudige beperkingen de andere promotor Prof Dick Tibboel en de vele kinderarts-specialisten uit het Erasmus MC Sophia, UMC Utrecht, AMC en perifere praktijken in Zuidwest Nederland.
- In de GOUD-studie copromotoren Dr Ruud van Wijck en Dr Michael Echteld, en Dr Pepijn van Empelen van Maatschappelijke Gezondheidszorg. Tevens werkten wij in deze studie samen met nieuwe reuzen: de bestuurders, zorgdirecteuren en middenmanagers van het GOUD-consortium, die ervoor gezorgd hebben dat een bijna onmogelijk onderzoek helemaal goed verlopen is.
- In de AVG-opleiding hebben wij onveranderlijk prettig en creatief samengewerkt met de zeer gemotiveerde staf van AVGs en gedragskundigen, onder de leiding van achtereenvolgens de bekwame senior-AVGs Marijke Meijer, Frans Ewals, en sinds september Hanneke Veeren.
- Met Middin zijn wij in goede harmonie aan hun eigen studie begonnen; ik dank het management voor het in ons gestelde vertrouwen. Tevens dank ik Prof Alex Rosemann voor de prettige en creatieve samenwerking waarin wij dit onderzoek zijn gestart, direct na zijn aanstelling aan de TU Eindhoven.
- Inmiddels hebben 19 onderzoekers hun proefschrift (bijna) voltooid, terwijl vier promovendi druk bezig zijn met hun onderzoek. Ik dank hen allemaal voor hun enthousiaste bijdragen aan de kennis over een bijzondere bevolkingsgroep, de eersten voor hun geduld met mij als onervaren begeleider, en de prima sfeer waarin het onderzoek, ondanks hobbels en kuilen, steeds weer is verlopen. Verder hebben een kleine 70 studenten, voornamelijk van het Erasmus MC maar daarnaast uit verschillende andere universiteiten en hogescholen, met hun masteronderzoek stukjes van de puzzels gelegd. Ik heb ervan genoten om dit met jullie allemaal samen te doen.
- Dr Dederieke Festen en Dr Thessa Hilgenkamp, mijn interim-opvolgers die 5 jaar lang de tent draaiende moeten houden: jullie hebben een fantastische start gemaakt met de voorbereidingen van GOUD 2 en de Middin-studie, en jij Thessa, met je Marie Curie fellowship waarvoor je in de VS en hier twee jaar fundamenteel aan je eigen onderzoekslijn kunt werken. Ik ben trots en blij dat twee zulke uitstekende onderzoekers bereid waren het van mij over te nemen. Met

plezier zal ik jullie nog een poosje op die weg coachen volgens het tenure track dat wij daarvoor ontworpen hebben. Hetzelfde geldt voor de parttime postdocs Heidi Hermans, Alyt Oppewal, Channa de Winter, Marlies Valstar en Fleur Boot. Zij worden eveneens gecoacht in de richting van senior-onderzoekers, waaraan in ons wetenschapsdomein dringend behoefte is.

Ik heb gezegd.

Referenties

- Bastiaanse L, van der Kamp A, Evenhuis H & Echteld M. Dysphagia in older people with intellectual disabilities: results of the HA-ID study. Ingezonden voor publicatie.
- Bokken J & Evenhuis HM. Herontwerp van een begeleidingsmethodiek voor mensen met een visuele en verstandelijke beperking. Rapport Sensus, Grave & Erasmus MC, 2009.
- Boot FH, Pel JJ, Evenhuis HM, van der Steen J. Quantification of visual orienting responses to coherent form and motion in typically developing children aged 0-12 years. *Invest Ophthalmol Vis Sci*. 2012a;53:2708-14.
- Boot FH, Pel JJ, Evenhuis HM, vd Steen J. Factors related to impaired visual orienting behavior in children with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2012b;33:1670-6.
- Boot FH, Pel JJ, Vermaak MP, Van der Steen J, Evenhuis HM. Delayed visual orienting responses in children with developmental and/or intellectual disabilities. *J Intellect Disabil Res* 2013;57:1093-1103.
- Calis EA, Veugelers R, Sheppard JJ, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Dysphagia in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability. *Dev Med Child Neurol*. 2008;50:625-30.
- Dekker MC, Koot HM, van der Ende J, Verhulst FC. Emotional and behavioral problems in children and adolescents with and without intellectual disability. *J Child Psychol Psychiatry* 2002;43:1087-98.
- Dekker MC, Nunn RJ, Einfeld SE, Tonge BJ, Koot HM. Assessing emotional and behavioral problems in children with intellectual disability: revisiting the factor structure of the developmental behavior checklist. *J Autism Dev Disord* 2002;32:601-10.
- Dekker MC, Koot HM. DSM-IV disorders in children with borderline to moderate intellectual disability. II: child and family predictors. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2003;42:923-31.
- Dekker MC, Koot HM. DSM-IV disorders in children with borderline to moderate intellectual disability. I: prevalence and impact. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 2003;42:915-22.
- Douma JC, Dekker MC, de Ruiter KP, Tick NT, Koot HM. Antisocial and delinquent behaviors in youths with mild or borderline disabilities. *Am J Ment Retard* 2007;112:207-20.
- Evenhuis HM, Hilgeman IS, Bosman AJ & Laatz JAPM de. De Fluisterkaart voor verstandelijk gehandicapten. Evaluatie van een aangepaste fluisterspraaktest. *Huisarts & Wetenschap* 2004;47:142-6.
- Evenhuis HM & Sjoukes L. Tekortschieten van de behandeling van slechtziendheid bij mensen met verstandelijke beperkingen – wie is verantwoordelijk? *Commentaar Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde* 2008;152:1034-6.
- Evenhuis HM & Penning C. Eight years of specialist training of Dutch intellectual disability physicians: results of scientific research education. *J Policy Practice Intellect Disabil* 2009;6 Dec.
- Evenhuis HM. Niet eerder oud, maar eerder ongezonder. *Ned Tijdschr Geneesk* 2014;158:2060-71.
- Hermans H, Jelluma N, Van der Pas FMH & Evenhuis HM. Feasibility, reliability and validity of the Anxiety, Depression And Mood Scale (ADAMS) in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil*. 2011;32:861-70.
- Hermans H, Wieland J, Jelluma N, Van der Pas FMH & Evenhuis H. Reliability and validity of the Dutch version of the Glasgow Anxiety Scale for people with an intellectual disability (GAS-ID). *J Intellect Disabil Res* 2012a Oct 10 (E-pub).

- Hermans H et al. Life events and their associations with mental ill-health in older people with intellectual disabilities. *J Affect Disord.* 2012b;138:79-85.
- Hermans H, Beekman AT, Evenhuis HM. Prevalence of depression and anxiety in older users of formal Dutch intellectual disability services. *J Affect Disord* 2013;144:94-100.
- Hermans H & Evenhuis HM. Multimorbidity in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:776-83.
- Hilgenkamp TI, Reis D, van Wijck R, Evenhuis HM. Physical activity levels in older adults with intellectual disabilities are extremely low. *Res Dev Disabil.* 2012a;33:477-483.
- Hilgenkamp T et al. Feasibility and reliability of tests for measuring physical fitness in older adults with intellectual disabilities: a pilot study. *J Intellect Dev Disabil.* 2012b;37:158-62.
- Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Low physical fitness levels in older adults with ID: Results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil.* 2012c;33:1048-58.
- Jelluma N & De Vink P. Lux; een luxe?! Verlichtingssterkte in de leefomgeving van mensen met een verstandelijke beperking. Verslag leeronderzoek AVG-opleiding, Erasmus MC, 2012.
- JGZ-richtlijn 'Opsporing visuele stoornissen 0-19 jaar'. JGZ, 2010.
- Kuijper G de , Hoekstra P, Visser F, Scholte FA, Penning C, Evenhuis H. Use of antipsychotic drugs in individuals with intellectual disability (ID) in the Netherlands: prevalence and reasons for prescription. *J Intellect Disabil Res.* 2010;54:659-67.
- Kuijper G de, Mulder H, Evenhuis H, Visser F, Hoekstra PJ. Effects of controlled discontinuation of long-term used antipsychotics on weight and metabolic parameters in individuals with intellectual disability. *J Clin Psychopharmacol* 2013;33:520-4.
- Kuijper G de , Evenhuis H, Minderaa RB, Hoekstra PJ. Effects of controlled discontinuation of long-term used antipsychotics for behavioural symptoms in individuals with intellectual disability. *J Intellect Disabil Res.* 2014;58:71-83.
- Maaskant M, van de Wouw-van Dijk E et al. Circadian sleep-wake rhythm of older people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil.* 2013;34:1144-51.
- Mergler S, De Man SA, Boot AM, Bindels-de Heus GCB, Huijbers WAR, Van Rijn RR, Schouten LJ, Penning C & Evenhuis HM. Bone quality and its determinants in children with severe neurological impairment and intellectual disability. Ingezonden voor publikatie.
- Meuwese-Jongheugd A, Harteloh P, Verschuure H, Nijs L, Koot H & Evenhuis H. Audiological rehabilitation in adults with intellectual disability: why does it fail? *J Policy Practice Intellect Disabil* 2005;2:66-67.
- Meuwese-Jongheugd A, Vink M, Zanten B van, Verschuure H, Bernsen R & Evenhuis H. Prevalence of hearing impairment in adults with an intellectual disability: cross-sectional population study. *International J Audiology* 2006;45:660-9.
- Meuwese-Jongheugd A, Splunder J van, Vink M, Stilma JS, Zanten GA van, Verschuure J, Bernsen R & Evenhuis HM. Epidemiology of dual sensory impairment (deafblindness) in adults with intellectual disabilities. *Am J Ment Retard.* 2008;113:254-62.

- Mulder AF, Kamerling EG, Stam H, Mergler S & Evenhuis HM. Feasibility of spirometry, impulse oscillometry and total body plethysmography in adults with mild and moderate intellectual disabilities: a pilot study. In voorbereiding.
- Nederlandse Vereniging van Artsen voor Verstandelijk Gehandicapten. Richtlijn Slechthorendheid. 1995.
- Nederlandse Vereniging van Artsen voor Verstandelijk Gehandicapten. Richtlijn Visuele stoornissen. 1997.
- Rieken R, Goudoever JB van, Schierbeek H, Willemsen SP, Calis EA, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Measuring body composition and energy expenditure in children with severe neurological impairment and intellectual disability. *Am J Clin Nutr* 2011;94:759-66.
- RIVM. Nederland de maat genomen. RIVM rapport 260152001/2011. Rijksinstituut voor Volksgezondheid en Milieu.
- Schijndel-Speet M van, Evenhuis HM, van Empelen P, van Wijck R, Echteld MA. Development and evaluation of a structured programme for promoting physical activity among seniors with intellectual disabilities: a study protocol for a cluster randomized trial. *BMC Public Health*. 2013;13:746.
- Schijndel-Speet M van, et al. Facilitators and barriers to physical activity as perceived by older adults with intellectual disabilities. *Intellect Dev Disabil* 2014;35:175-86.
- Schijndel-Speet M van, Evenhuis HM, van Wijck R, Echteld MA. Implementation of a group-based physical activity programme for ageing adults with ID: a process evaluation. *J Eval Clin Pract* 2014;20:401-7.
- Schijndel-Speet M van, Evenhuis HM, van Wijck R, van Montfort CAGM & Echteld MA. Results of a cluster randomised clinical trial show that a physical activity programme for ageing adults with intellectual disabilities is effective. Ingezonden voor publikatie.
- Schoufour JD, Mitnitski A, Rockwood K, Evenhuis HM, Echteld MA. Development of a frailty index for older people with intellectual disabilities: results from the HA-ID study. *Res Dev Disabil*. 2013;34:1541-55.
- Schoufour JD, Mitnitski A, Rockwood K, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Predicting disabilities in daily functioning in older people with intellectual disabilities using a frailty index. *Res Dev Disabil* 2014;35:2267-77.
- Schoufour JD, Evenhuis HM, Echteld MA. The impact of frailty on care intensity in older people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:3455-61.
- Schoufour JD, Echteld MA, Bastiaanse LP, Evenhuis HM. The use of a frailty index to predict adverse health outcomes in people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2015;38:39-47.
- Splunder J van, Stilma JS & Evenhuis HM. Refractive errors and visual impairment in 900 adults with intellectual disabilities in the Netherlands. *Acta Ophthalmol* 2003; 81:123-9.
- Splunder J van, Stilma JS, Bernsen RMD & Evenhuis HM. Prevalence of ocular diagnoses found on screening 1,539 adults with intellectual disabilities. *Ophthalmology* 2004;111:1457-63.
- Splunder J van, Stilma JS, Bernsen RMD & Evenhuis HM. Prevalence of visual impairment in adults with intellectual disabilities in the Netherlands: cross-sectional study. *Eye* 2006;20:1004-10.

- Vaal, J., Gussekloo, J., Klerk, M.M.Y. de, Frijters, D.H.M., Evenhuis, H.M., Beek, A.P.A. van, Nispen, R.M.A. van, Smits, C. en Deeg, D.J.H. Gecombineerde visus- en gehoorbeperking: naar schatting bij 30.000-35.000 55-plussers in Nederland. *Ned Tijdschr Geneesk* 2007; 151:1459-63.
- Veugelers R, Benninga MA, Calis EA, Willemsen SP, Evenhuis H, Tibboel D, Penning C. Prevalence and clinical presentation of constipation in children with severe generalized cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2010;52:e216-21.
- Winter CF de, Bastiaanse LP, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Overweight and obesity in older people with intellectual disability. *Res Dev Disabil.* 2012;33:398-405.
- Winter CF de, Bastiaanse LP, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Cardiovascular risk factors (diabetes, hypertension, hypercholesterolemia and metabolic syndrome) in older people with intellectual disability: results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil.* 2012;33:1722-1731.
- Winter CF de & Evenhuis HM. Cardiovasculaire risico's bij mensen met een verstandelijke beperking. *Ned Tijdschr Geneesk* 2014;158:2055-9.
- Winter CF de, Bastiaanse LP, Kranendonk SE, Hilgenkamp TIM, Evenhuis HM, Echteld MA. Peripheral arterial disease in older people with intellectual disability in The Netherlands using the ankle-brachial index: results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil* 2013;34:1663-8.
- Wouw-van Dijk E van de et al. Comparison of two types of Actiwatch with polysomnography in older adults with intellectual disability: a pilot study. *Res Dev Disabil* 2013;38:265-73.
- Zaal-Schuller IH, Goorhuis AE, Bock-Sinot A, Claassen IH, Echteld MA, Evenhuis HM. The prevalence of peripheral arterial disease in middle-aged people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil.* 2014;36C:526-531.

Visuele en gehoorstoornissen bij volwassenen met verstandelijke beperkingen

1. Inleiding

Deze eerste onderzoekslijn had al een lange persoonlijke voorgeschiedenis, die begon toen ik als jonge arts in de Johannesstichting te Nieuwveen werd aangesteld bij het bejaardenpaviljoen en vaststelde dat van die bejaarden slechts weinigen een bril, leesbril of hoortoestel hadden. Na systematische controles van mijn eigen patiëntenbestand, gebruik makend van de gewone Snellen en ‘poezen’kaarten en zelfs screening van de oogboldruk met de ouderwetse Schiøtz tonometrie, en een aangepaste fluistertest (‘Heb je al koffie gedronken?’), waarna onze ervaren logopediste Willemijn Roerdinkholder spelaudio-metrie verrichtte, werden bij heel wat mensen brillen en hoortoestellen aangemeten en staaroperaties verricht.

In de 80-er jaren kwamen diagnostische methoden beschikbaar waarmee mensen onderzocht konden worden die de gewone tests niet konden begrijpen. In een samenwerking met Dr Bert van Zanten en Michel Brocaar van de afdeling Audiologie aan het Erasmus MC pasten wij succesvol hersenstam-audiometrie toe en later oto-acoustische emissies (OAE), waarna een proces van hoortoestelaanpassing en -gewenning aanving onder begeleiding van consulent Dr Hans Verschuure van dezelfde afdeling. Tegelijkertijd startte een samenwerking met de pioniers Geert Kinds en later Trudy Arentz van Bartiméushage, waarin wij systematisch alternatieve methoden gingen toepassen om de gezichts-scherpte te meten: Stycar en Lea Hyvärinen tests, en Tellerkaarten. Op deze wijze werden ook bij de bewoners met matige en ernstige verstandelijke beperkingen (IQ <50) vele onvermoede visuele en gehoorstoornissen vastgesteld (Evenhuis et al 1992; 1995a,b; 2001), ook bij kinderen en jong-volwassenen.

In het kader van een NWO Ontginningssubsidie zijn onder mijn leiding in de 90-er jaren eerste multidisciplinaire diagnostische richtlijnen opgesteld voor slechthorendheid (NVAVG, 1995) en visuele stoornissen (NVAVG, 1997). In de commissies werd samengewerkt met klinische en technische specialisten uit de gespecialiseerde organisaties voor blinden en slechtzienden respectievelijk doven en slechthorenden, academische afdelingen voor oogheelkunde, KNO en audiologie, artsen voor verstandelijk gehandicapten en huisartsen, met steun van de betreffende beroepsverenigingen.

Toen daarna in het NWO-programma Chronisch Zieken ook subsidie beschikbaar kwam voor onderzoek bij mensen met verstandelijke beperkingen, waren wij in de gelegenheid om op basis van die richtlijnen eerste epidemiologisch onderzoek te verrichten naar de omvang van de problematiek en naar risicogroepen, direct gevolgd door interventiestudies. Nadat wij op basis daarvan voldoende onderzoekservaring hadden opgebouwd, startten wij pas met het moeilijkste thema: cerebrale visuele stoornissen.

2. Doelen

Ons uiteindelijke doel was de tijdige opsporing, diagnostiek en adequate behandeling van vroegkinderlijke en leeftijdsgebonden visuele en gehoorstoornissen bij kinderen en volwassenen met verstandelijke beperkingen, waar zij ook wonen.

Tussentijdse doel was wetenschappelijke onderbouwing van de voornamelijk op onderzoek in andere groepen en klinische consensus gebaseerde richtlijnen.

Wetenschappelijke doelen:

1. Prevalenties, ernst en aard van slechtziendheid en blindheid, slechthorendheid en doofheid, en risicogroepen.
2. Effecten van bril- en hoortoestelaanpassing, scholing van woonbegeleidersteams, medische behandeling en omgevingsinterventies
3. Toepasbare diagnostische methoden voor cerebrale (cognitieve) visuele stoornissen
4. Eerste inzichten in de prevalentie en aard van cerebrale visuele stoornissen

3. Studies

In totaal hebben wij sinds 1998 zes studies verricht:

1. Een brede inventariserende studie naar visuele en gehoorstoornissen in een representatieve populatie van 1598 cliënten van 18 jaar en ouder van 14 organisaties voor intra- en extramurale verstandelijk gehandicaptenzorg. De screening vond plaats tussen september 1998 en januari 2002.
2. Een studie naar het proces en de uitkomsten van behandeling van slechthorendheid, gebaseerd op diagnoses in dezelfde studiepopulatie (2000–2006).
3. Een *randomised controlled trial* (RCT) naar het effect van interventies voor slechtzienheid en blindheid bij 18+ cliënten met matige en ernstige verstandelijke beperkingen van drie grote aanbieders van intra- en extramurale zorg. Gedurende drie jaren werden cliënten bij wie voor het eerst slechtziendheid of blindheid werd gediagnostiseerd, uitgenodigd voor deelname aan deze interventiestudie. Tevens werden proceskenmerken bestudeerd (2001-2007).
4. Een valideringsstudie van de Fluisterkaart voor mensen met een verstandelijke beperking.
5. Een studie naar de normwaarden van neuropsychologische tests voor cognitieve (cerebrale) visuele functies in een controlegroep van 119 schoolkinderen van 4-7 jaar zonder visuele problemen, en de uitkomsten bij 49 kinderen (30 Belgisch en 19 Nederlands) met een verhoogd risico op of reeds vermoede cerebrale visuele stoornissen en 21 kinderen met oogheelkundige afwijkingen van 4-15 jaar (metingen 2006-2009).

6. Een studie waarin een objectieve methode werd ontwikkeld voor het onderzoek van (cognitieve) visuele functies bij kinderen die te jong of te gehandicapt zijn voor neuropsychologisch testonderzoek (2009-2013).

Vijf onderzoekers hebben in deze lijn een proefschrift voltooid, waarvan vier inmiddels zijn gepromoveerd:

1. Jacques van Splunder. Visual impairment: prevalences and causes of visual impairment in adults with intellectual disabilities. UMC Utrecht, 2003.
2. Anneke Meuwese-Jongejeugd. Hearing impairment in adults with an intellectual disability: epidemiology and rehabilitation. Erasmus MC, 2006.
3. Liesbeth Sjoukes. The impact of visual impairment on adults with an intellectual disability. Erasmus MC, 2008.
4. Fleur Boot. Visual processing dysfunctions in children with intellectual disabilities. Erasmus MC, 2013
5. Ymie van der Zee. Diagnosing cerebral visual dysfunctions in children: looking beyond visual acuity and visual fields. Erasmus MC, in voorbereiding.

De artsen voor verstandelijk gehandicapten Laura Nagtzaam, Marianne Vink en Michiel Vermaak hebben tevens een belangrijke bijdrage geleverd.

4. Samenwerking

In deze studies is samengewerkt met een groot aantal partijen in de verstandelijk gehandicaptenzorg, de gespecialiseerde zorg voor mensen met visuele of gehoorstoornissen, de kinderrevalidatie, academische centra, kinderoogartsen en audiologische centra, basisscholen en scholen voor speciaal onderwijs in de regio Rotterdam.

Studie 1 werd gefinancierd door NWO Chronisch Zieken, de Dr Fischerstichting en het Maria Regina Scholtenfonds, en opgezet en uitgevoerd in nauwe samenwerking met Prof Dr Jan Sytze Stilma (Oogheelkunde UMC Utrecht), Dr Bert van Zanten en Michel Brocaar (Audiologie Erasmus MC). De begeleidingscommissie bestond verder uit Dr Jan de Laat (Audiologisch Centrum LUMC), Michiel Dudok van Heel, Liesbeth Sjoukes, Marleen Verhoef en Mies van Genderen (oogarts Bartiméus). De screening werd kosteloos uitgevoerd door Bartiméushage (Doorn), Effatha (Zoetermeer) en het Instituut voor Doven (St Michielsgestel) in 14 organisaties voor verstandelijk gehandicaptenzorg (Abrona, AGO Dagverblijven, Amarant, Binkhorst, ASVZ Merwebolder, Gemiva-SVG, Heimerstein, Losserhof, Pameijer, Philadelphia, Prinsenstichting-Kadijkerkoog, Saamvliet,

Talant/Maartenswouden, Westerhonk). Voor vervolgdagnostiek en hoortoesteladvisering werd samengewerkt met vrijwel alle audiologische centra in het land. De KNO-artsen E. Eichhorn en D. Koopman verrichtten op alle locaties de KNO-dagnostiek, terwijl aanvullende oogheelkundige diagnostiek werd verricht door de (kinder)oogartsen LAK Bastiaensen, JRM Cruysberg, JTHN de Faber, MM van Genderen, FD Koole, JWR Pott, CMC Schweitzer, M Swart-van den Berg, NT Tijmes, D. Wittebol-Post en MN Zaman.

Carla Weerdenburg had de logistieke leiding en ICT-specialist Johan Stap ontwierp en onderhield het web-based databestand.

Studie 2 werd financieel ondersteund door ZonMw en de Amantia Stichting, en uitgevoerd in samenwerking met Dr Hans Verschuure (Audiologisch Centrum Erasmus MC), Prof Dr Hans Koot (Kinderpsychiatrie Erasmus MC, later Ontwikkelingspsychologie VU Amsterdam), Dr Ir Lau Nijs (Bouwfysiologie TU Delft) en Dr Peter Harteloh (Beleid en Management in de Gezondheidszorg, Erasmus Universiteit). Dezelfde zorgorganisaties en audiologische centra als in studie 1 waren betrokken bij dit vervolgonderzoek. Het samengesteld behandelprotocol werd ontwikkeld door een expertgroep bestaande uit Dr Hans Verschuure, Prof Dr Jan van Dijk, Dr Hans van Balkom, Dr Matthijs Vervloed, Bé Steenbergen, Irene Brouwer, Roel Menke, Marianne Vink en Reinout Koldewijn.

Studie 3 werd financieel ondersteund door ZonMw, Inzicht en Oogfonds Nederland, en uitgevoerd in een samenwerking met Prof Dr Hans Koot (Kinderpsychiatrie Erasmus MC, later Ontwikkelingspsychologie VU Amsterdam) en Prof Dr Aart Kooijman (Videologie, Oogheelkunde UMC Groningen). De diagnostische metingen en revalidatie-adviezen werden verzorgd door Bartiméus (Zeist), Sensus (Breda) en De Brink (Vries) bij zorgorganisaties Amerpoort (Baarn), Amarant (Tilburg) en Talant (Drachten).

Studie 4 werd verricht door een masterstudent, in een samenwerking met Dr Ir AJ Bosman (Audiologisch Centrum UMC St Radboud Nijmegen) en Dr Ir JAPM de Laat (Audiologisch Centrum LUMC). De metingen werden verricht in zorgorganisaties Prisma, Amarant, Willem van de Bergh en NOVO; toonaudiogrammen waren aldaar vervaardigd door de logopedisten RAW Verpoorten, C de Bal, JJ van der Wal en AJM Flemming-Schrader. De Fluisterkaart is ontworpen door Nanette Evenhuis en de ontwikkelings- en drukkosten werden vergoed door audicienketen Beter Horen.

Studie 5 werd grotendeels gefinancierd door Visio Rotterdam en uitgevoerd in samenwerking met Dr Peter Stiers (Laboratorium Neuropsychologie, Universiteitshospitaal Leuven, later Afd Neuropsychologie en Psychofarmacologie Maastricht Universiteit) en Dr Johan Pel (Neurowetenschappen Erasmus MC). Deelnemers werden geworven bij Visio Rotterdam, Rijndam

Revalidatiecentrum Rotterdam, Oogziekenhuis Rotterdam, Laboratorium Neuropsychologie van het Universiteitshospitaal Leuven, en de scholen Eduard van Beinum, Openbare basisschool Charlois, De Bergse Zonnebloem en Visio-school in Rotterdam.

Studie 6 werd financieel gesteund door de AVG-opleiding (AIOTO-constructie) en het Novum Fonds. De dagelijkse begeleiding berustte bij Dr Hans van der Steen en Dr Johan Pel, Neurowetenschappen Erasmus MC.

Deelnemers werden geworven bij Visio Rotterdam, Oogziekenhuis Rotterdam, Rijndam Revalidatiecentrum, Rotterdamse crèches en basisscholen, Tytlytschool (Rotterdam), St Mattheusschool (Rotterdam), Thermiekschool (Leiden), Ericaschool (Vlaardingen).

De begeleidingscommissie voor de studies 5 en 6 bestond uit Prof Dr Heleen Evenhuis (Geneeskunde voor Verstandelijk Gehandicapten), Dr Hans van der Steen en Dr Johan Pel (Neurowetenschappen Erasmus MC), Dr Paul Looijestijn en Sannie van der Steen (Visio), Dr Peter Stiers (Laboratorium Neuropsychologie, Katholieke Universiteit Leuven; nu Psychologie & Neurowetenschappen, Universiteit Maastricht).

5. Resultaten

5.1 Prevalenties, risicogroepen en oorzaken van visuele en gehoorstoornissen

Visuele stoornissen

Slechtziendheid en blindheid werden gediagnostiseerd volgens WHO-definities.

Slechtziendheid aan het beste oog werd vastgesteld bij 14% (95% betrouwbaarheidsinterval 12-15%) en blindheid bij 6% (5-7%) van de cliëntenpopulatie van 18 jaar en ouder met lichte tot ernstige verstandelijke beperkingen (Splunder et al, 2006). Beide (gewogen) prevalenties zijn tienmaal zo hoog als in de algemene bevolking van 55 jaar en ouder, zoals was gemeten in de Rotterdamse ERGO studie (Klaver et al, 1998). Bij 41% was de diagnose vóór deze studie nog niet gesteld.

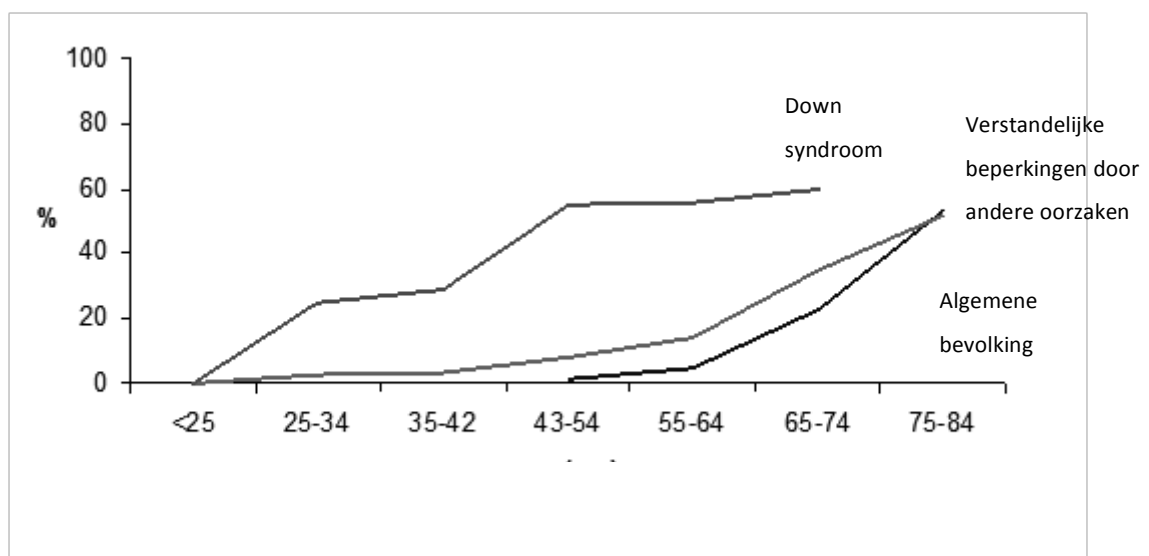
Slechtziendheid en blindheid worden vooral heel veel gevonden bij jong-volwassenen met een ernstige verstandelijke beperking. Hieraan is te zien dat mensen met ernstige hersenschade een sterk verhoogd risico hebben op aangeboren schade aan de ogen, maar ook aan de visuele hersenbanen (cerebrale visuele stoornissen). Daarnaast hebben vanzelfsprekend ouderen, maar ook mensen met het Down syndroom een verhoogd risico (Splunder et al, 2006). Het was al langere tijd bekend dat mensen met het Down syndroom vaak een sterke bril nodig hebben, en vanaf rond hun 30^{ste} jaar staar gaan ontwikkelen.

Bij 60% van de slechtzienenden of blinden werden refractie-afwijkingen gevonden (bril nodig), wat qua aantal vergelijkbaar is met de algemene bevolking, maar het risico op ernstige bijziendheid bleek 3½ maal hoger dan in de algemene bevolking. Bovendien bleek van degenen die een bril nodig hadden, maar 51% al een bril te hebben, waarvan overigens de sterkte meestal adequaat was. Helaas lukte het bij degenen zonder bril meestal niet om de gezichtsscherpte nog eens te onderzoeken met brillenglazen op, vanwege onbegrip, angst of gedragsproblemen. Bij 94 deelnemers bij wie het wel lukte, was er met bril bij 69 een relevante verbetering van de gezichtsscherpte en zes waren niet langer slechtzienend. Bij 714 deelnemers was het mogelijk, ook de gezichtsscherpte voor dichtbij te onderzoeken. Die is van belang voor lezen, plaatjes kijken en fijn werk, en gaat zoals bekend vanaf de leeftijd van 40 jaar achteruit. Van degenen ouder dan 50 jaar had dan ook 55% een leesbril nodig; 44% daarvan had er al een. Onder de jongeren (< 50 jaar) hadden 24 deelnemers een leesbril nodig en die hadden ze allemaal al (Splunder et al, 2003).

Strabisme (scheelzien) komt bij mensen met verstandelijke beperkingen tienmaal zo vaak voor als in de algemene bevolking (42% versus 4%).

Cataract (staar) werd gediagnostiseerd bij 13%, terwijl daarnaast 70 mensen al eens een staaroperatie hadden ondergaan. In figuur 1 is te zien, dat cataract bij volwassenen met verstandelijke beperkingen vaker voorkomt dan in de algemene bevolking, en bij mensen met het Down syndroom nog vaker.

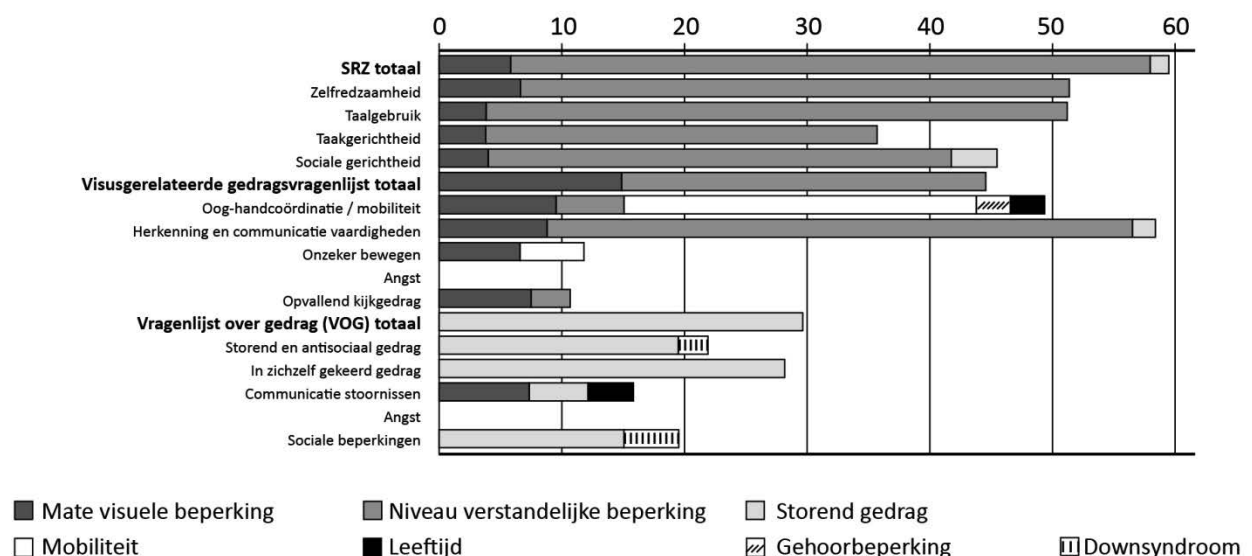
Figuur 1 Cataract naar leeftijd



Wegens slechtzienendheid of blindheid werden 261 deelnemers verwezen naar een groep gespecialiseerde (kinder) oogartsen, die het bestaan van refractie-afwijkingen, strabisme en cataract hebben bevestigd en een reeks andere oogheelkundige afwijkingen hebben gediagnostiseerd, waarvan een deel in principe behandelbaar is. Wij hebben geen informatie in hoeverre de adviezen door de eigen behandelaars zijn uitgevoerd (Splunder et al, 2004).

Door Liesbeth Sjoukes is in een cross-sectionele studie onderzocht, in hoeverre slechthoortheid of blindheid, naast de verstandelijke beperking, leidt tot extra beperkingen en tot meer emotionele en gedragsproblemen. Figuur 2 toont dat de verstandelijke beperking een overheersende invloed heeft, maar dat de slechthoortheid daarbovenop gepaard gaat met een significant slechtere zelfredzaamheid, communicatie en sociale vaardigheden en met minder initiatief. Dit is het sterkst het geval in de groep met een matige verstandelijke beperking (Evenhuis, Sjoukes et al, 2009). Interventies voor de slechthoortheid zijn dus ook voor mensen met verstandelijke beperkingen, die ‘toch al afhankelijk zijn’, van het grootste belang voor hun zelfstandigheid en kwaliteit van leven.

Figuur 2 Bijdragen van de verstandelijke beperking, het gezichtsvermogen en gedragsproblematiek aan het functioneren (Evenhuis, Sjoukes et al, 2009)



Gehoorstoorntissen

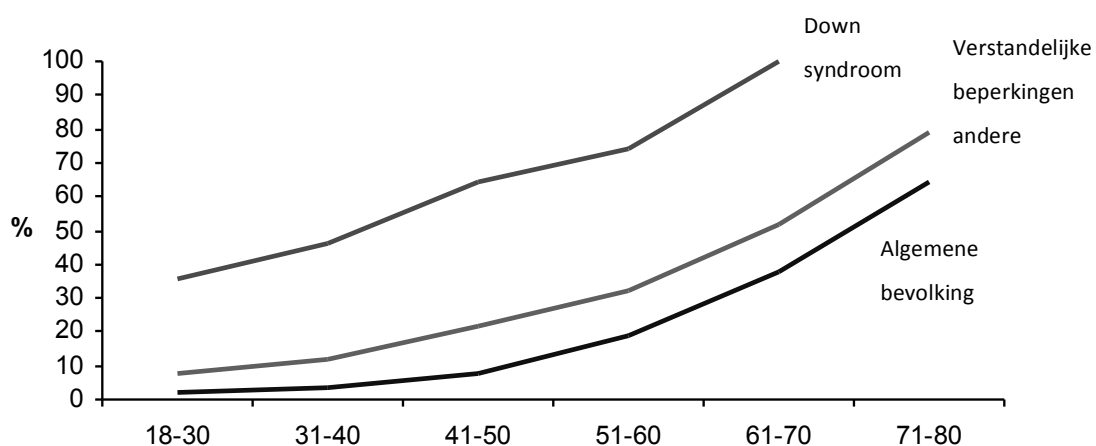
Slechthoortheid, gedefinieerd en geclassificeerd volgens WHO-definities, komt voor bij 30% (95% betrouwbaarheidsinterval 28-33%) van de 18+ cliëntenpopulatie met verstandelijke beperkingen; de helft heeft een licht (gemiddeld 26-40 dB aan het beste oor) en de andere helft een matig of ernstig gehoorverlies (gemiddeld >40 dB aan het beste oor) (gewogen prevalenties). De slechthoortheid was niet eerder onderkend bij 48% (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2006).

De vergoedingsgrens voor hoortoestellen ligt bij 35 dB. Echter, de onderzoeksgroep veronderstelt dat bij mensen met een cognitieve beperking al bij een geringer gehoorverlies, vanaf gemiddeld 25 dB, een hoortoestel overwogen moet worden, omdat ze minder vaardig zijn in het ‘intelligent raden’.

In tegenstelling tot slechthoortheid, komt slechthorendheid niet vaker voor bij mensen met ernstige verstandelijke beperkingen. Hier zijn mensen met het Down syndroom de ernstigste risicogroep, gevolgd door ouderen (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2006). Het is algemeen bekend dat kinderen met het Down syndroom veel acute en chronische middenoorinfecties hebben. Deze infecties gaan bij hen op volwassen leeftijd lang niet altijd over. De afsluiting van het middenoor kan leiden tot een zogenaamd geleidingsverlies. Aan het eind van de 80-er jaren is vastgesteld, dat bij veel volwassenen met het Down syndroom rond de 30 jaar ook achteruitgang van het gehoororgaan zelf gaat optreden, leidend tot verliezen in de hoge tonen en later ook de lagere tonen (Buchanan, 1990; Evenhuis et al, 1992). Dit begint bij andere mensen boven de 50 jaar, en zou dus een teken kunnen zijn van vervroegde veroudering. Daarnaast kunnen chronische middenoorontstekingen en sommige daarvoor gebruikte antibiotica ook leiden tot een verminderde functie van het gehoororgaan.

Figuur 3 geeft een vergelijkbaar beeld als bij cataract: mensen met verstandelijke beperkingen hebben op alle leeftijden een hoger risico op slechthorendheid dan de algemene bevolking, en voor de groep met het Down syndroom is dat risico nog een stuk hoger.

Figuur 3 Prevalenties van slechthorendheid naar leeftijd (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2006)



Helaas zijn de resultaten van het KNO-onderzoek door tijdgebrek niet gepubliceerd, zodat wij over de aard van de gevonden slechthorendheid geen informatie kunnen geven.

Dubbele zintuiglijke beperkingen

Bij 77 deelnemers, waarvan 23 met het Down syndroom, werd zowel een visuele als een gehoorstoornis vastgesteld. De gewogen prevalentie was 5% (95% betrouwbaarheidsinterval 4-6%) voor de hele 18+ populatie, 3% (2-4%) beneden 50 jaar en 11% (8-15%) bij 50-plussers (Meuwese-

Jongejeugd et al, 2008). Tabel 1 toont het verschil met dubbele zintuiglijke beperkingen in de algemene bevolking, waar het voornamelijk op hoge leeftijd voorkomt (Vaal et al, 2007).

Tabel 1 Prevalenties van dubbele zintuiglijke beperking in leeftijdsgroepen

Leeftijd (jaar)	verstandelijke beperking	Leeftijd (jaar)	Algemene bevolking (LASA studie)
< 50	3%		(< 0,03%)
50-59	6%	55-64	0,1%
60-69	10%	65-69	0,4%
70+	13%	70-74	0,7%
		75-79	0,3%
		80-84	2,4%
		85+	6,3%

Zoals te verwachten was, is ook hier het risico speciaal verhoogd bij mensen met zeer ernstige verstandelijke beperkingen (IQ <25), ouderen, en mensen met het Down syndroom.

Hoewel in dit soort gevallen vaak gesproken wordt over doofblindheid, toont Tabel 2, dat het in de helft van de gevallen ging om een combinatie van slechtziendheid en lichte slechthorendheid.

Tabel 2. Ernst van de beperkingen bij 69 personen met dubbele zintuiglijke beperkingen (Meuwese-Jongejeugd et al, 2008)

	Licht slechthorend	Matig slechthorend	Ernstig slechthorend	Doof	Totaal
Slechtziend	32	15	7	2	56
Blind	6	4	2	1	13
Totaal	38	19	9	3	69

De combinatie van slechtziendheid en slechthorendheid was bij maar 9 van 77 deelnemers al eerder bekend, terwijl alleen slechtziendheid bekend was bij zes en alleen slechthorendheid bij 24 van hen. Dit is vooral jammer omdat te verwachten is dat, ook als de stoornissen licht zijn, de combinatie extra beperkend is wanneer er ook nog een verstandelijke beperking bijkomt.

In Tabel 2 wordt een overzicht gegeven van de kwantitatieve resultaten.

Tabel 2 Samenvatting van de belangrijkste kwantitatieve resultaten

	Geëxtrapoleerde prevalenties in de cliëntenpopulatie met verstandelijke beperkingen (95% betrouwbaarheids-interval)	Prevalenties algemene bevolking	Gemiste diagnoses in de groep met afwijkingen
Slechtziendheid	14% (12-15%)↑	ERGO 55+: 1,4%	43%
Blindheid	6% (5- 7%)↑	0,5%	36%
Refractie-afwijkingen	59%	55%	49%
Leesbril nodig	55%		56%
Strabisme	42%↑	4%	
Cataract (staar)	13%↑		
Slechthorendheid	30% (28-33%)↑	Britse en Italiaanse populatiestudies 16-17%	48%
• licht	15%		
• matig tot ernstig	15%		
Dubbele zintuiglijke beperking	5% (4- 6%)↑		88%
< 50 jaar	3% (2- 4%)↑	65-: < 0,03%	
≥ 50 jaar	11% (8-15%)↑	65+: 1,4% (1-2%) 85+: 5% (2-7%)	

5.2 Interventiestudies

Interventies voor zintuigstoornissen zijn gecompliceerd. Het gaat niet alleen om brillen, hoortoestellen en cataractoperaties, maar ook om het aanpassen van de omgeving. Slechtzienden hebben uitgekende lichtomstandigheden nodig, omdat zij zowel aan de onderkant (schaduw, donkere hoeken) als de bovenkant (fel zonlicht) weinig zien. Dat betekent heldere verlichting tot in alle hoeken en gaten, ook op de gang en het toilet, en gerichte taakverlichting op de werkplek en bezigheden in de woonkamer, evenals boven de eettafel. Fel zonlicht binnen moet afgeschermd worden met een zonnescherm en buiten met een zonnebril. Voor ernstig slechtzienden zijn duidelijke contrastkleuren nodig om overgangen, trap treden of routes te markeren, evenals leuningen om zelfstandige verplaatsing te vergemakkelijken. Eigenlijk zouden in woningen van ouderen en van mensen met ernstige verstandelijke beperkingen, waar een groot deel van de bewoners slechtziend of blind is, standaard dit soort maatregelen genomen moeten zijn.

Slechthorenden zijn eveneens extra gehandicapt aan de onderkant (zachte geluiden) en de bovenkant (overgevoelig voor harde geluiden). Hun spraakverstaan wordt ernstig bemoeilijkt door achtergrondgeluiden. Dit wordt nog verergerd door de slechte akoestische omstandigheden in groepshuizen: als gevolg van gladde vloeren en muren is er veel nagalm in bijvoorbeeld de huiskamers. Geluidsmetingen door masterstudenten van de TU Delft in enkele modern opgezette

groepswoningen toonden aan, dat de geluidsomstandigheden vooral rond het avondeten abominabel waren, met veel pratende mensen, op de achtergrond de radio of TV, en vanuit de keuken –waarvan de deur openstond opdat de begeleider de bewoners in de gaten kon houden- geluid van kletterende pannen en de afzuigkap. Nu uit ons onderzoek is gebleken dat gemiddeld eenderde van de volwassen bewoners slechthorend is, en in woningen voor ouderen is dat aantal nog hoger, zou hieraan systematisch aandacht besteed moeten worden.

Er zijn dus niet alleen technische aanpassingen nodig (in geval van renovatie en nieuwbouw standaard), maar ook scholing van alle betrokkenen, in de eerste plaats de woon- en activiteitenbegeleiders. Doorgaans is het gebruik van een bril niet problematisch, al zullen mensen met ernstige verstandelijke beperkingen even moeten wennen. Maar voor hoortoestellen is echt een gewenningsperiode nodig, vanwege de andere kwaliteit van het geluid, de extra overgevoeligheid voor harde geluiden, en problemen met het oorstukje in de gehoorgang. Als de begeleider dit niet heel goed weet en ondersteunt, verdwijnen de toestellen in de kast of erger.

5.2.1 Effecten van interventie

Beide studies faalden als effectstudies, omdat de implementatie van voorgeschreven behandelingen en gegeven adviezen, ondanks de zorgvuldige voorbereidingen, informatie en training, in alle deelnemende zorgorganisaties onvolledig was. Deze studies leverden dus veel informatie over barrières voor systematische, *evidence-based* zorgverbetering (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2005; Sjoukes et al, 2009; ongepubliceerd).

5.2.2 Implementatie van geadviseerde interventies in het kader van de studies

De geadviseerde brilaanpassing, hoorrevalidatie en overige behandelingen strandden niet in de eerste plaats, zoals wij verwacht hadden, doordat de cliënt er niet voor voelde, maar door problemen die daarvoor al rezen op het niveau van de organisatie. Tijdens de door Anneke Meuwese-Jonghejeugd en Liesbeth Sjoukes uitgevoerde interventiestudies is duidelijk geworden dat er nog veel barrières zijn om het gewenste proces van opsporing-diagnose-behandeling-begeleiding van deze cliënten in de praktijk toe te passen. De belangrijke knelpunten bleken te liggen in de organisatie van het verwijs-, diagnose- en behandelproces, de samenwerking binnen en tussen betrokken organisaties, de feitelijke toepassing van de verstrekte technische accommodatie-adviezen en het toezicht op het dagelijks gebruik van hulpmiddelen als hoortoestellen en brillen. Onderliggend probleem was dat dit type zorgaanbod forse consequenties heeft voor het beleid en budget van de zorgorganisatie (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2005; (Sjoukes et al, 2009; ongepubliceerd). Dit alles is te betreuren, omdat de verwachtingen en voldoening van volwassenen met lichte en matige verstandelijke beperkingen met hun hoortoestellen bepaald worden door dezelfde elementen als bij andere mensen: voordelen (beter horen, minder moe, werk weer kunnen doen), cosmetische aspecten (voorkeur voor gekleurde apparaten), geluidskwaliteit en akoestiek, draaggemak, en dienstverlening door de audicien (Meuwese-Jonghejeugd et al, 2007).

Liesbeth Sjoukes stelde vast dat gezamenlijk anticiperen op barrières voor zorginnovatie niet werkt wanneer er geen concrete, verplichtende betrokkenheid van het management is (Sjoukes et al, 2006). In het geval van complexe interventies als deze, waarbij medewerking en tijd van veel verschillende partijen gevraagd wordt, is deskundig projectmanagement vereist, met structurele ondersteuning, duidelijke budgetafspraken, een goed project- en communicatieplan, en het uiteindelijk doel van inbedding in routine procedures.

5.3 Validering van de Fluisterkaart

De Fluisterkaart, een kaart met plaatjes in felle kleuren die aangewezen kunnen worden als reactie op op 1,5 meter afstand gefluisterde woorden, is door Heleen Evenhuis samen met audioloog Dr Ir Arjan Bosman en tekenaar Nanette Evenhuis ontworpen als screeningsinstrument voor slechthorendheid bij mensen met verstandelijke beperkingen. In feite is het een in deze populatie toepasbare versie van de in de huisartsgeneeskunde gebruikte fluisterspraaktest. De kaart is, met hulp van masterstudent Ilse-Sigrid Hilgeman, in twee fasen gevalideerd tegen de uitkomsten van toonaudiometrie. De sensitiviteit voor gemiddelde verliezen van 25dB en hoger is bij een afkapwaarde van 6 missers 93% (95% betrouwbaarheidsinterval 80-98%), en de specificiteit 90% (68-98%) (Evenhuis et al, 2004). Bij mensen met een lichte verstandelijke beperking kan het onderzoek beter zonder kaart uitgevoerd worden, omdat zij geholpen worden door de kaart; dit leidde tot enkele gemiste diagnoses van lichte slechthorendheid.

5.4 Diagnostiek van cerebrale (cognitieve) visuele functiestoornissen

Behalve de gezichtsscherpte en de gezichtsvelden, die in de eerste plaats bepaald worden door goede ogen, spelen de hersenen een belangrijke rol in de verwerking van de visuele prikkels. Daarbij zijn allerlei functies te onderscheiden, die geregeld worden door aparte hersengebieden en hersenbanen ('dorsale en ventrale stroom'). Functies van de dorsale stroom zijn bijvoorbeeld het waarnemen van beweging, het vermogen om motorisch te reageren op visuele prikkels, en visuele aandacht. Herkenning van voorwerpen is een typische functie van de ventrale stroom. Maar herkenning van voorwerpen onder lastige omstandigheden, bijvoorbeeld onder een rare hoek, blijkt weer door de dorsale stroom geregeld te worden.

Neuropsychologische tests

Neuropsycholoog Ymie van der Zee heeft een studie opgezet met als doel een reeks diagnostische tests voor zulke functies, die in de praktijk van de visuele adviescentra gebruikt zouden kunnen worden bij kinderen van 4-7 jaar. In het bijzonder heeft zij zich gericht op functies van de dorsale stroom. In een samenwerking met Peter Stiers, die hier in Leuven aan werkte, werd een brede batterij computertests

samengesteld op basis van de wetenschappelijke literatuur (Tabel 1) (Van der Zee et al, ingezonden voor publikatie a).

Eerst zijn 119 kinderen zonder visuele problemen van Rotterdamse basisscholen gemeten om voor de verschillende tests normaalwaarden te bepalen. Omdat dat per kind varieert, is ‘normaalwaarde’ nog een relatief begrip. Daarom werd als grens het 10^e (zwak) of 5^e percentiel (abnormaal) gehanteerd. Daarna zijn dezelfde metingen verricht bij 49 kinderen met verstandelijke en/of motorische beperkingen.

Tabel 1 Testbatterij Dorsale stroomfuncties

Cognitieve functies	Tests
Waarnemen van beweging: • globale beweging • herkennen van vormen op grond van beweging • snelheid van beweging • biologische beweging	Random dot kinematogrammen Menselijke vorm in puntjes
Herkennen van voorwerpen onder lastige omstandigheden (onvolledige lijntekeningen, vreemd perspectief, afleiding)	L94: 5 subtaken
Visuoconstructieve vaardigheden	Beery VMI SON-R subtest mozaïeken
Visuele aandacht	Visuele zoektaak
Crowding	Cambridge Crowding Cards Teller kaarten

De toepasbaarheid van deze tests bij kinderen met en zonder beperkingen wordt getoond in Tabel 2.

Tabel 2 Toepasbaarheid van neuropsychologische tests (Van der Zee, ingezonden c, d)

Tests (aantal taken)	Kinderen met beperkingen	N	Kinderen in basisonderwijs	N
Waarnemen beweging (4)	10x 4 taken 24x 3 taken 7x 2 taken 6x 1 taak 2x 0 taken	49	2x incompleet	119
Objectherkenning (5)	35x 5 taken 7x 4 taken 4x 3 taken 2x 0 taken	48	59x 5 taken 1x 4 taken	60
Visuoconstructieve vaardigheid (2)	43x ≥ 1 taak	48	60x ≥ 1 taak	60
Visuele aandacht (1)	35x 1 taak	48	60x	60
Crowding ratio (2)	19x 2 taken 7x 1 taak	26	74x 2 taken 7x 1 taak (logistiek)	81

De belangrijkste bevindingen bij kinderen met (een vermoeden van) hersenschade (Van der Zee, ingezonden b-d):

- Behalve de test voor biologische beweging zijn de tests goed toepasbaar bij kinderen met verstandelijke en/of motorische beperkingen met een ontwikkelingsleeftijd van tenminste 4 jaar
- De testresultaten voor de waarneming van voorwerpen en beweging moeten worden beoordeeld op basis van hun ontwikkelingsleeftijd en niet de kalenderleeftijd (Van der Zee, ingezonden b)
- Waarnemen van beweging: specifiek verhoogde risico's op verminderd waarnemen van globale beweging en herkennen van vormen door beweging (Van der Zee, ingezonden b)
- Verhoogd risico op herkennen van bekende voorwerpen onder lastige omstandigheden (Van der Zee, ingezonden c)
- De meerderheid van de kinderen met problemen met het herkennen van voorwerpen onder lastige omstandigheden presteert ook zwak op een andere functietest (waarneming van beweging, visuele aandacht). Slechts een beperkte groep heeft problemen op meer dan twee dorsale functiegebieden (Van der Zee, ingezonden c)
- Een test van de crowding ratio (moeite met zien onder visueel drukke omstandigheden) is een gemakkelijk toepasbare methode met voldoende sensitiviteit en specificiteit om onder naar de

oogarts of het visueel adviescentrum verwezen kinderen degenen met (ook) een verhoogd risico op cognitieve visuele stoornissen eruit te pikken. Hij is echter niet valide voor selectie van risicogeveallen bij de routine screening van alle schoolkinderen (Van der Zee, ingezonden d).

De eerste aanbevelingen voor de klinische praktijk om de opsporing van kinderen met cognitieve visuele problemen te verbeteren, zijn dan ook:

1. Diagnostiek van crowding toevoegen aan de routine orthoptische diagnostiek bij kinderen in de oogheelkundige praktijk.
2. Diagnostiek van crowding toevoegen aan het routine orthoptisch intake-onderzoek van de gespecialiseerde visuele adviescentra. Dit wordt inmiddels al regelmatig gedaan.
3. Toevoegen van het criterium ‘bevestigde hersenschade’ of ‘expliciet risico op hersenschade’ aan de huidige indicatiecriteria voor gespecialiseerd diagnostisch onderzoek door visuele adviescentra.
4. In de visuele adviescentra kan reeds gebruik gemaakt worden van de door ons geselecteerde testbatterij, maar alleen om de slechtste gevallen te identificeren. Deze heeft wel modernisering – overzetting naar ‘de Tobii’ (zie hieronder) zou mooi zijn. Nader onderzoek van normaalwaarden in alle leeftijdsgroepen vereist zeer grote studiepopulaties (internationale samenwerking?).

5.4.2 Objectieve diagnostiek

Voor objectieve diagnostiek van visuele verwerkingsstoornissen bij zeer jonge en gehandicapte kinderen, die niet kunnen meedoen aan neuropsychologische tests, is in samenwerking met de afdeling Neurowetenschappen (Dr Hans van der Steen) een nieuwe methodiek ontwikkeld. Hierbij wordt gebruik gemaakt van een monitor met geïntegreerde infrarood camera's, waarmee oogbewegingen automatisch worden vastgelegd (Tobii 1750, Tobii Corporation, Zweden). De methode combineert *preferential looking* met het meten van de oogbewegingen om kijkgedrag te kwantificeren. Hiervoor is door Michiel Vermaak en Lisette van der Does onder leiding van Johan Pel de software ontwikkeld om hogere visuele functies te meten. Bij het ontwerp van de test voor het waarnemen van globale beweging was Ymie van der Zee betrokken (Pel et al, 2013).

In het eerste hiermee verrichte onderzoek zijn de reacties van kinderen bestudeerd op Dick Bruna plaatjes en op specifieke vorm- en bewegingsstimuli (beelden), die op een monitor worden aangeboden. Hierbij werden de snelheid en de kwaliteit van fixatie op het aangeboden beeld gemeten. De verwerkingssnelheid wordt uitgedrukt in de reactietijd tot fixatie (*reaction time*) en de kwaliteit als de fixatieprecisie (*gaze fixation area*).

Om te beginnen zijn metingen verricht bij 213 niet-gehandicapte kinderen van 0-12 jaar om voor de fixatietijd leeftijdsgerelateerde normen te ontwikkelen. Hieruit bleek, dat de fixatiesnelheid, afhankelijk van het type stimulus, met name in de eerste 5 levensjaren snel toeneemt en daarna ongeveer hetzelfde blijft (Boot et al, 2012a).

Daarna zijn 127 kinderen met verstandelijke beperkingen of een combinatie van verstandelijke en motorische beperkingen met een leeftijd van 2-14 jaar onderzocht (Boot et al, 2012b). Vertraagde fixatie op de vormstimuli werd vastgesteld bij 47% van de gehandicapte kinderen en op de bewegingsstimuli bij 38% (Boot et al, 2012b). Dit kan een aanwijzing zijn dat zij moeite hebben met de verwerking van visuele prikkels in de hersenen. Verder kan visuele aandacht een punt zijn (Pel et al, 2011;2013). Mogelijk moet in deze groep voor sommige metingen de norm toegepast worden op de ontwikkelingsleeftijd in plaats van de kalenderleeftijd.

Behalve met de leeftijd is de reactietijd significant geassocieerd met de ernst van de verstandelijke beperking en met het Down syndroom. De fixatieprecisie is juist geassocieerd met de mobiliteit van het kind (GMFCS) en met strabisme en nystagmus (Boot et al, 2013).

De visuele kwantificatiemethode is nog in de oriëntatiefase, maar lijkt veelbelovend voor een snelle, objectieve opsporing van problemen met het waarnemen in alle leeftijdsgroepen (Pel et al, 2013). Het is duidelijk dat verdere ontwikkeling en onderzoek vereist zijn om in brede zin tot goede diagnostiek te komen. Deze onderzoekslijn en techniek worden voortgezet en geborgd vanuit de leerstoel Visuele Informatieverwerking, die in juli 2014 bij de afdeling Neurowetenschappen, Erasmus MC, is ingesteld door Visio (Prof Dr Hans van der Steen). Het onderzoek richt zich op een bredere doelgroep van mensen met visuele verwerkingsproblemen, van jong tot oud. Daartoe zijn structurele samenwerkingsrelaties aangegaan met het Oogziekenhuis Rotterdam en de afdeling Neonatologie van het Erasmus MC Sophia (Pel et al, 2011;2014). Tevens wordt inmiddels een groep kinderen gevolgd in het speciaal onderwijs voor slechtziende kinderen (Kooiker et al, 2014), terwijl longitudinale follow-up van prematuur geboren kinderen wordt voorbereid.

6. Kennisverspreiding en zorgverbetering

In deze oudste onderzoekslijn is, samen met zorgaanbieders op het gebied van visuele en gehoorstoornissen, veel gedaan aan kennisverspreiding en implementatie in de verstandelijk gehandicaptenzorg en de zorg voor mensen met visuele beperkingen.

6.1 *Kennisverspreiding*

Als onderdeel van de verschillende studies zijn de volgende producten vervaardigd:

- Anneke Meuwese-Jongejeugd, Heleen Evenhuis & Nanette Evenhuis. Hoor jij wel goed? Hoortoestellen: voorlichtingsmateriaal voor mensen met een verstandelijke handicap. Widex A/S. Verspreiding in Nederland: Veenhuis Medical Audio BV te Gouda (info@veenhuis.nl).

- Heleen Evenhuis & Nanette Evenhuis. Fluisterkaart voor mensen met verstandelijke beperkingen (met handleiding). Laatste exemplaren te verkrijgen via h.evenhuis@erasmusmc.nl.
- Danielle van Berlo & Anneke Meuwese-Jongejeugd (red). Akoestische aanpassingen in zorginstellingen voor mensen met een verstandelijke handicap en slechthorendheid. Proceedings van de voordrachten gehouden op 16 november 2000 aan de Faculteit Bouwkunde, TU Delft. Geen exemplaren meer te verkrijgen.
- Vierdaagse cursus 'Diagnostiek van visuele functies bij mensen met verstandelijke beperkingen' door Bartiméus, inclusief twee dagen persoonlijke praktische training bij eigen cliënten. Deze cursus is inmiddels structureel onderdeel van de AVG-opleiding.
- Heleen Evenhuis, Saskia Damen & Chrétienne van der Burg. Hoor én zie je me wel? Over mensen met een verstandelijke beperking die niet (goed) kunnen horen én zien. CCE Zuid-Holland en Zeeland, 2007.

6.2 Vroege opsporing

Kinderen

Contacten met jeugdartsen hebben ertoe geleid, dat in de vernieuwde JGZ-richtlijn 'Visuele stoornissen' specifiek aandacht wordt besteed aan kinderen met verstandelijke beperkingen, waarbij gebruik van de LH-test wordt aanbevolen.

Verder heeft een werkgroep bestaande uit kinderartsen, jeugdartsen, AVGs, oogartsen en een orthoptist, in 2006 een model ontworpen voor de opsporing van visuele stoornissen bij jonge kinderen in risicogroepen (verstandelijke beperkingen, cerebrale verlammingen, prematuren), gekoppeld aan vaccinatiemomenten (Evenhuis et al, 2007). In 2008 is de groep gestart met de voorbereiding van een evaluatieproject van de richtlijn in een proefregio. Door tijdgebrek van de deelnemers is dit niet gerealiseerd.

Volwassenen

Vanwege de verhoogde risico's op visuele en auditieve beperkingen en het feit dat in de verstandelijk gehandicaptenzorg niemand zich daarvan bewust was, werd in de NVAVG-richtlijnen van 1995 en 1997 actieve screening aanbevolen. Hiervoor werden diagnostische methoden en een model geformuleerd.

Uit een enquête in 2006, ingevuld door 60 AVGs en 10 AVGs-in-opleiding, bleek dat dezen merendeels het belang inzagen van de inmiddels 10 jaar oude richtlijn voor opsporing en diagnostiek van visuele stoornissen, en deze duidelijk vonden. Het merendeel vond echter, dat de AVG weliswaar op de hoogte moet zijn van de geadviseerde diagnostische methoden, maar deze niet per definitie zelf hoeft uit te voeren. Vermeende tijdrovendheid van het onderzoek en gebrek aan vaardigheden, met

name bij cliënten met ernstige verstandelijke beperkingen, lagen ten grondslag aan dit standpunt (Walinga & De Graaf, 2006). In 2006 is een *update* van de NVAVG richtlijn ‘Visuele stoornissen’ gestrand. Hoewel er in de commissie consensus was dat de aanbevolen methoden en procedures voor screening en vervolgdagnostiek inmiddels voldoende *evidence-based* waren en ongewijzigd konden blijven, werd geen consensus bereikt over welke partij de screening moet uitvoeren. Een *update* van de NVAVG-richtlijn ‘Slechthorendheid’ onder leiding van AVG Jan Trommelen is in een gevorderd stadium.

Screening door de revalidatie-instellingen werd tot 2015 vergoed vanuit de AWBZ, niet alleen in de verstandelijk gehandicaptenzorg, maar ook in revalidatiecentra, mytylscholen, tytylscholen en verzorgings- en verpleeghuizen. Screening moet gebaseerd zijn op het protocol in de NVAVG-richtlijn (1997), en er moet sprake zijn van vermoeden of verslechtering van visuele vermogens. Na onderzoek mag er een kortdurend traject ingezet worden om adviezen te geven aan cliënt en zijn/haar omgeving/begeleiding, met een maximum van 10 uur. Voor volwassen cliënten is het zo dat hun eigen bijdrage aangesproken wordt; voor kinderen tot 18 jaar geldt dit niet. Inderdaad hebben de visuele adviescentra de indruk, dat in de zorgorganisaties waar zij structurele werkafspraken mee hebben, AVGs zelf maar heel beperkt screenen, en dan nog voornamelijk op centrale, intramurale lokaties. Voor extramurale cliënten in groepshuizen is de indruk dat AVGs zich meer zijn gaan terugtrekken en de verantwoordelijkheid elders leggen. Dit laatste is overigens terecht, omdat veel extramurale cliënten geen indicatie hebben voor specialistische diagnostiek en behandeling. Het management van zorgorganisaties is hieraan noodzakelijkerwijs strenger dan vroeger de hand gaan houden.

Met de inwerkingtreding van de Wet Langdurige Zorg ligt de financiering voor de extramurale zorg met ingang van 2015 bij de ziektekostenverzekering. Er is nog onvoldoende zicht op wat dit gaat betekenen voor screening. In de praktijk zien de adviescentra sinds het begin van dit jaar een enorme terugloop in screenings en de inzet van vervolgtrajecten. Onderdiagnostiek en –behandeling dreigt.

Met het oog op de onderdiagnostiek bij volwassenen met verstandelijke beperkingen buiten de intramurale gespecialiseerde zorg, hebben wij in 1999 een pilotstudie uitgevoerd naar de uitvoerbaarheid van opsporing van visuele stoornissen door vrij gevestigde optometristen. Veertien willekeurige extramuraal wonende volwassen cliënten met lichte of matige verstandelijke beperkingen van zorgorganisatie Paus Johannes XXIII werden gescreend door optometristen in drie Rotterdamse brillenwinkels. Dit bleek succesvol te zijn; er werd nogal wat onvermoede problematiek gevonden. De cliënten vonden het minder belastend om in een gewone winkel in hun buurt onderzocht te worden dan naar een ziekenhuis te moeten (Evenhuis et al, 2009). Normaliter verricht de optometrist zulk onderzoek alleen bij klanten die mogelijk een (sterkere) bril nodig hebben; de vergoeding bestaat dus uit de verkochte bril. Voor bredere screening heeft de optometrist geen tarief. Als wij in het kader van

de veranderde zorg de opsporing van visuele stoornissen systematisch bij deze beroepsgroep willen neerleggen, is het gewenst dat de vrij gevestigde optometrist hiervoor een structurele vergoeding krijgt, bijvoorbeeld als ‘verlengde arm’ van de oogarts.

De gevalideerde Fluisterkaart is met een handleiding verspreid onder alle AVGs en lijkt zijn plaats gevonden te hebben in de routine diagnostiek. Op beperkte schaal is de Fluisterkaart ook verspreid onder geïnteresseerde huisartsen.

6.3 Revalidatie

Visuele adviescentra: ‘Kijk, zo kan het ook’

De gespecialiseerde organisaties voor mensen met visuele beperkingen hebben, op basis van de nu bekende risico’s en de bevindingen van de twee implementatiestudies, hun dienstverlening gericht verbeterd. Sensis heeft in 2007 fors geïnvesteerd in verbetering van de advisering door zijn teams voor visueel en verstandelijk gehandicapten, resulterend in de methodiek ‘Kijk, zo kan het ook’ (Bokken & Wiersema, 2009). De methodiek is na de fusie van Sensis met Visio geïmplementeerd bij alle teams die werken met mensen met een visuele en verstandelijke beperking, en wordt tevens gebruikt door enkele teams die met kinderen werken. Ook bij begeleiding op kinderdagcentra wordt steeds meer gebruik gemaakt van de methodiek. ‘Kijk, zo kan het ook’ wordt als cursus binnen de Visio Academie aangeboden aan nieuwe medewerkers; deelnemers zijn zowel gedragswetenschappers als ambulante begeleiders. Inmiddels ontvangen ook bij Bartiméus alle medewerkers die werken met mensen met een visuele en verstandelijke beperking deze scholing. Door zorgorganisaties die mee hebben gedaan aan het traject, worden positieve ervaringen gemeld: begeleiders worden door het gezamenlijk bekijken van video- beelden gestimuleerd om zelf na te gaan denken en nemen als team de tijd om stil te staan bij een cliënt, gericht op concrete hulpvragen. Adviezen lijken beter opgevolgd te worden dan 10 jaar geleden, waarbij opgemerkt moet worden dat dit niet is getoetst. Echter, wat betreft het opvolgen van adviezen is de wind zeker niet gunstiger met alle bezuinigingen, zoals minder begeleiding op een groep. Het aantal aanmeldingen voor het vervolgetraject na screening neemt dan ook af.

Verder hebben Bartiméus en Sensis een boek gepubliceerd over technische aanpassing van de woonomgeving van slechtzienden, inclusief een bijlage voor architecten (Wildenberg et al, 2002).

Audiologische centra

Het voor de betreffende interventiestudie door een expertgroep (audiologische centra, gespecialiseerde centra voor doven en slechthorenden, verstandelijk gehandicaptenzorg) ontwikkelde audiologisch revalidatieprotocol voor deze doelgroep is in 2000 formeel geaccepteerd door de Federatie van Nederlandse Audiologische Centra (FENAC). Het protocol bestaat uit modules voor: 1. hoortoestelaanpassing, gewenning en training; 2. optimale akoestische omstandigheden; 3.

communicatie-interventie; 4. training van woonbegeleiders in de zorg. Ik heb geen informatie of audiologische centra dit protocol in hun routine hebben opgenomen, en ook niet of mensen met verstandelijke beperkingen nu meer naar audiologische centra worden verwezen dan vroeger.

Verstandelijk gehandicaptenzorg

Uit een telefonische enquête onder bestuurders in 2005 bleek, dat de meeste bestuurders tevreden waren over de screeningen en zich niet bezighielden met de wijze waarop de adviezen werden uitgevoerd en tot welke resultaten dat leidde. Drie organisaties hadden apart beleid gemaakt voor het verwijs/adviestraject. Meer aandacht voor zintuigstoornissen had doorgaans geen prioriteit, omdat deze niet leiden tot overlast. De accommodatie-eisen waren wel bekend - het door Bartimèus en Sensis uitgegeven boek met aanbevelingen voor verlichting en contrast (Wildenberg et al, 2002) had daaraan bijgedragen - maar werden alleen haalbaar geacht bij nieuwbouw. De kloof tussen aanbod en vraag was nog te groot (Evenhuis & Wiersema, 2005).

Ik heb geen zicht op hoe inmiddels de situatie rond revalidatie van zintuigstoornissen in de intra- en extramurale zorg is. Een recent leeronderzoek, waarvoor lichtsterktemetingen werden verricht in 30 woningen en drie dagactiviteitencentra door de AVGs-in-opleiding Naftha Jelluma en Peter de Vink, stemde niet optimistisch: bij binnenkomst voldeed 7% van de metingen aan de ARBO-norm (36% in de dagcentra en 2% in de woningen) en nadat alle lichten waren aangedaan voldeed 8% (37% versus 3%). Het scheelde wel als er adviezen waren gegeven door een professionele organisatie: op zulke lokaties voldeed bij binnenkomst 19% aan de norm tegenover 6% als dit niet het geval was geweest. Na maximale verlichting werd dat 24% versus 7% (Jelluma & De Vink, 2012).

Publikaties

- Bokken J & Evenhuis HM. Herontwerp van een begeleidingsmethodiek voor mensen met een visuele en verstandelijke beperking. Rapport Sensus, Grave & Erasmus MC, 2009.
- Boot FH, Pel JJM, Steen J van der, Evenhuis HM. Cerebral visual impairment: which perceptive visual dysfunctions can be expected in children with brain damage? A systematic review. *Res Dev Disabil* 2010;31:1149-59.
- Boot FH, Pel JJ, Evenhuis HM, van der Steen J. Quantification of visual orienting responses to coherent form and motion in typically developing children aged 0-12 years. *Invest Ophthalmol Vis Sci*. 2012a;53:2708-14.
- Boot FH, Pel JJ, Evenhuis HM, vd Steen J. Factors related to impaired visual orienting behavior in children with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2012b;33:1670-6.
- Boot FH, Pel JJ, Vermaak MP, Van der Steen J, Evenhuis HM. Delayed visual orienting responses in children with developmental and/or intellectual disabilities. *J Intellect Disabil Res* 2013;57:1093-1103.
- Buchanan LH. Early onset of presbycusis in Down syndrome. *Scand Audiol* 1990;19:103-110.
- Evenhuis HM, Van Zanten GA, Brocaar MP & Roerdinkholder WHM. Hearing loss in middle-age persons with Down syndrome. *Am J Ment Retard* 1992;97:47-56.
- Evenhuis HM. Medical aspects of ageing in a population with intellectual disability: I. Visual impairment. *J Intell Disabil Res* 1995a;39:19-26.
- Evenhuis HM. Medical aspects of ageing in a population with intellectual disability: II. Hearing impairment. *J Intell Disabil Res* 1995b;39:27-34.
- Evenhuis HM, Theunissen M, Denkers I, Verschuure H & Kemme H. Prevalence of visual and hearing impairment in a Dutch institutionalized population with intellectual disability. *J Intell Disabil Res* 2001;45:457-64.
- Evenhuis HM, Hilgeman IS, Bosman AJ & Laat JAPM de. De Fluisterkaart voor verstandelijk gehandicapten. Evaluatie van een aangepaste fluisterspraaktest. *Huisarts & Wetenschap* 2004;47:142-6.
- Evenhuis HM, Splunder J van, Vink M, Weerdenburg C, Zanten B van & Stilma J. Obstacles in large-scale epidemiological assessment of sensory impairments in a Dutch population with intellectual disabilities. *J Intell Disabil Res* 2004;48:709-18.
- Evenhuis HM & Wiersema MI. Zicht op Beter Horen Beter Zien? Conclusies en aanbevelingen uit een telefonische enquête onder zorgbestuurders. Rapport en Bijlage met samenvatting van resultaten, 2005.
- Evenhuis H, Graaf G van der, Walinga M, Bindels-de Heus K, Genderen M van, Verhoeff M, Lantau K, Meulen-Ennema H van der, Meester N, Wienen L & Schalijs-Delfos N. Detection of childhood visual impairment in at-risk groups. *J Policy Practice Intel Disabil* 2007;4:165-9.
- Evenhuis HM, Sjoukes L, Koot HM & Kooijman AC. Does visual impairment lead to additional disability in adults with intellectual disabilities? *J Intell Disabil Res* 2009;53:19-28.
- Evenhuis HM & Sjoukes L. Tekortschieten van de behandeling van slechtziendheid bij mensen met verstandelijke beperkingen – wie is verantwoordelijk? *Commentaar Nederlands Tijdschrift voor Geneeskunde* 2008;152:1034-6.
- Heleen Evenhuis, Riens Gort, Wietse de Lege, Bert van Wijk, Stef le Loux, Hans Moerkerken, René Baljon, Hans Lemij. Opsporing van visuele stoornissen bij volwassenen met verstandelijke beperkingen

in de wijk: een rol voor optometristen? TAVG 2009;27:49-51 (ook een kort bericht in Medisch Contact).

- Jelluma N & De Vink P. Lux; een luxe?! Verlichtingssterkte in de leefomgeving van mensen met een verstandelijke beperking. Verslag leeronderzoek AVG-opleiding, Erasmus MC, 2012.
- Klaver CCW, Wolfs RCW, Vingerling JR, Hofman A, DE Jong PTVM. Age-specific prevalence and causes of blindness and visual impairment in an older population. Arch Ophthalmol 1998;16:653-8.
- Kooiker MJG, van der Steen J & Pel JJ. Reliability of visual orienting response measures in children with and without visual impairments. J Neurosci Methods 2014;233:54-62.
- Kooiker MJ, Pel JJ & van der Steen J. The relationship between visual orienting responses and clinical characteristics in children attending special education for the visually impaired. J Child Neurol. 2014 Jul 17 Epub ahead of print]
- Evenhuis HM, Sjoukes L, Koot HM & Kooijman AC. Does visual impairment lead to extra disability in adults with intellectual disabilities? A cross-sectional study. J Intellect Disabil Res 2009;53:19-28.
- Meuwese-Jongheugd A, Harteloh P, Verschuure H, Nijs L, Koot H & Evenhuis H. Audiological rehabilitation in adults with intellectual disability: why does it fail? J Policy Practice Intellect Disabil 2005;2:66-67.
- Meuwese-Jongheugd A, Vink M, Zanten B van, Verschuure H, Bernsen R & Evenhuis H. Prevalence of hearing impairment in adults with an intellectual disability: cross-sectional population study. International J Audiology 2006;45:660-9.
- Meuwese-Jongheugd A, Verschuure H, Evenhuis HM. Hearing aids: expectations and satisfaction of people with an intellectual disability, a descriptive pilot study. J Intell Disabil Res 2007;51:913-22.
- Meuwese-Jongheugd A, Splunder J van, Vink M, Stilma JS, Zanten GA van, Verschuure J, Bernsen R & Evenhuis HM. Epidemiology of dual sensory impairment (deafblindness) in adults with intellectual disabilities. Am J Ment Retard. 2008;113:254-62.
- Pel JJM, van der Does L, Boot FH, de Faber JT, van der Steen SP, Willemsen S & van der Steen J. Effects of visual processing and congenital nystagmus on visually guided ocular motor behaviour. Developm Medicine Child Neurol 2011;53:344-9.
- Pel JJM, Boot FH, van der Zee YJ, Evenhuis HM & van der Steen J. Remote eye tracking as a tool to assess differences in processing coherent motion. J Eyetracking, Visual Cognition Emotion 2011;2:1647-7.
- Pel JJM, van der Zee YJ, Boot FH, Evenhuis HM & van der Steen J. Remote eye tracking assesses age dependence processing of coherent motion in typically-developing children. J Med Eng Technol. 2013;37:109-15.
- Pel JJM, Kooiker MJG, van der Does JME, Boot FH, de Faber JT, van der Steen SP & van der Steen J. orienting responses to various visual stimuli in children with visual processing impairments or infantile nystagmus syndrome. J Child Neurol 2014; 29:1632-7.
- Sjoukes L, Harteloh P & Evenhuis H. Is concept-mapping an effective method of introducing complex interventions into intellectual disability services? J Policy Practice Intell Disabil 2006;3:133-5.
- Sjoukes L, Kooijman A, Koot H & Evenhuis HM. Rehabilitation of low vision in adults with intellectual disabilities: the influence of staff. J Applied Res Intellect Disabil 2009;2:133-5.

- Sjoukes L, Koot H, Kooijman A, Willemsen S & Evenhuis H. A randomized controlled trial of interventions for visual impairment in adults with intellectual disabilities. Unpublished.
- Splunder J van, Stilma JS & Evenhuis HM. Visual performance in specific syndromes associated with intellectual disability. *Eur J Ophthalmol* 2003;13:568-74.
- Splunder J van, Stilma JS & Evenhuis HM. Refractive errors and visual impairment in 900 adults with intellectual disabilities in the Netherlands. *Acta Ophthalmol* 2003; 81:123-9.
- Splunder J van, Stilma JS, Bernsen RMD & Evenhuis HM. Prevalence of ocular diagnoses found on screening 1,539 adults with intellectual disabilities. *Ophthalmology* 2004;111:1457-63.
- Splunder J van, Stilma JS, Bernsen RMD & Evenhuis HM. Prevalence of visual impairment in adults with intellectual disabilities in the Netherlands: cross-sectional study. *Eye* 2006;20:1004-10.
- Vaal, J., Gussekloo, J., Klerk, M.M.Y. de, Frijters, D.H.M., Evenhuis, H.M., Beek, A.P.A. van, Nispen, R.M.A. van, Smits, C. en Deeg, D.J.H. Gecombineerde visus- en gehoorbeperking: naar schatting bij 30.000-35.000 55-plussers in Nederland. *Ned Tijdschr Geneesk* 2007; 151:1459-63.
- Van der Zee YJ, Pel JJM, Stiers P, Van der Steen J & Evenhuis HM. Applicability of computerised motion perception tasks in clinical practice for children. A systematic review. Ingezonden voor publikatie a.
- Van der Zee YJ, Stiers P & Evenhuis HM. Motion perception in children with brain damage and the relation to chronological age and performance age. Ingezonden voor publikatie b.
- Van der Zee YJ, Stiers P, Heymans HJHM & Evenhuis HM. Are performances on a task for object recognition under suboptimal conditions (L94) related to other dorsal system functions in children with brain damage? Ingezonden voor publikatie c.
- Van der Zee YJ, Stiers P & Evenhuis HM. Should we add visual acuity ratios to referral criteria for assessment of cognitive functioning? Ingezonden voor publikatie d.
- Walinga M & Van de Graaf G. Hoe ziet de AVG... de NVAVG richtlijn voor diagnostiek en behandeling van visuele stoornissen bij verstandelijk gehandicapten? *TAVG* 2006;24:5-8.
- Wildenberg M van den, Welbergen M van & Burg C van der. Bewust Bouwen voor mensen met een visuele en verstandelijke beperking. Bartiméus, 2002.

Comorbiditeit van kinderen met ernstige meervoudige beperkingen

1. Inleiding

Kinderen en volwassenen met ernstige meervoudige beperkingen – verstandelijk, motorisch en vaak ook sensorisch - zijn in de verstandelijk gehandicaptenzorg, maar ook in de kinderartsenpraktijk, de meest gehandicapte groep met gecompliceerde gezondheids-problematiek. Hoewel dit relatief gezien maar een zeer kleine groep is (in het jaar 2000 telde de Inspectie voor de Gezondheidszorg in heel Nederland ruim 2000 kinderen en bijna 3000 volwassenen met ernstige meervoudige beperkingen), eisen zij een speciale inzet van huisartsen, kinderartsen, neurologen en orthopeden, evenals van artsen voor verstandelijk gehandicapten (AVGs) en paramedische disciplines in het kinderdagcentrum. Met de behandeling van hun aangeboren afwijkingen, epilepsie, motorische problematiek en orthopedische problemen (scoliose, contracturen, heupluxaties) was inmiddels binnen de reguliere geneeskunde en de zorg veel ervaring opgebouwd, terwijl met verfijnde genetische en beeldvormende diagnostiek bij steeds meer kinderen een betrouwbare diagnose kan worden gesteld, waarop een genetisch advies voor de familie kan worden gebaseerd.

Het epidemiologisch onderzoek dat wij tussen 2001 en 2009 in deze groep hebben verricht, werd geïnspireerd door dringende vragen van kinderartsen en AVGs rond de veelvuldige longontstekingen en voedingsproblemen, die bij veel van deze mensen een voortdurende bedreiging vormen van hun gezondheid en levensgeluk, en een zware druk leggen op de gezinnen waarin zij leven. Een ander probleem wordt gevormd door de nogal eens voorkomende botbreuken, soms zelfs tijdens de normale verzorging. De omvang van deze problematiek, en hun onderlinge samenhang, waren niet eerder door zorgvuldig epidemiologisch onderzoek in kaart gebracht. Dat komt vooral omdat wetenschappelijk onderzoek een extra belasting vormt voor deze uiterst kwetsbare kinderen en dus ethisch gevoelig ligt, terwijl de gebruikelijke diagnostiek niet altijd mogelijk is of niet goed te interpreteren. Verder is het, gezien de beperkte omvang van de populatie, een hele toer is om een representatieve studiegroep te vormen met een voldoende grote omvang.

Omdat de genoemde problematiek doorgaans al op de kinderleeftijd begint, besloten wij ons onderzoek te richten op kinderen, en te beginnen met vragen naar de omvang van de problematiek, de onderliggende oorzaken, en de diagnostische methoden.

2. Doelen

Ons uiteindelijk doel was om informatie te verzamelen als basis voor wetenschappelijk onderbouwde professionele richtlijnen en verbetering van de klinische praktijk.

Wetenschappelijke doelen:

1. Prevalenties van longontstekingen en een niet-optimale voedingstoestand, en hun onderliggende oorzaken (chronisch obstructieve longziekte, onvoldoende voedingsinname, slikstoornissen, reflux van maagzuur, chronische obstipatie) en van osteoporose bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen
2. In deze groep toepasbare, weinig belastende en valide diagnostische instrumenten voor longfunctie, voedingstoestand, slikfunctie, reflux van maagzuur, chronische obstipatie, botkwaliteit en motorische vaardigheden.

3. Studies

In totaal werden onder leiding van Dr Corine Penning en later Dr Michael Echteld de volgende studies verricht:

Voedings- en longproblemen:

1. Een breed inventariserend onderzoek naar long- en voedingsproblemen bij 194 kinderen van 2-18 jaar in 56 dagcentra en tytlylscholen
2. Een valideringsonderzoek van diagnostische methoden om de voedingstoestand te meten bij 61 cliëntjes van acht zorgorganisaties

Osteoporose:

3. Toepasbaarheidsonderzoeken van twee diagnostische methoden om de botkwaliteit te meten, respectievelijk bij 151 intramurale volwassen en kindercliënten met lichte tot zeer ernstige verstandelijke beperkingen en bij 95 kinderen met ernstige meervoudige beperkingen in vier kinderartspoliklinieken. In de laatste studie werd tevens een prevalentie bepaald van te lage botkwaliteit.

Motorische vaardigheden:

4. Ontwikkeling van een instrument om de ontwikkeling van de motorische vaardigheden en de effecten van fysiotherapeutische behandeling objectiever vast te leggen.

De uitkomsten van deze studies zijn gepubliceerd in een reeks van internationale publikaties, terwijl de laatste publikaties nog onderweg zijn. Vijf onderzoekers hebben in deze onderzoekslijn een proefschrift voltooid:

1. Rebekka Veugelers. A population-based study on comorbidity in children with severe motor and intellectual disabilities: focus on feasibility and prevalence. 2006
2. Rob Rieken. Assessing body composition and energy expenditure in children with severe neurological impairment and intellectual disability. 2010
3. Elsbeth Calis. Correlates of lower respiratory tract infections and nutritional state in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability. 2011
4. Sandra Mergler. Bone quality in children with severe neurological impairment and intellectual disability. 2012
5. Sonja Mensch. MOVAKIC: development of a measurement instrument for the evaluation of motor capacities in children with severe multiple disabilities. Gepland voor 2015

4. Samenwerking

Voor deze studies is samengewerkt met een groot aantal partijen in academische centra, perifere kinderopieliniken, de verstandelijk gehandicapenzorg en het speciaal onderwijs.

De studies 1 en 2 werden deels gefinancierd door NWO Chronisch Zieken en uitgevoerd in samenwerking met Prof Dr D Tibboel (IC Kinderchirurgie, Erasmus MC Sophia). Verder werd samengewerkt met een grote reeks kinderdagcentra en woonlokaties in de verstandelijk gehandicapenzorg en tytlyscholen, en met diverse kindergeneeskundige deelspecialismen in Erasmus MC Sophia (Prof Dr J. Bouquet en Dr J. Escher, Gastroenterologie; Dr P. Merkus, Longziekten; Prof Dr J. van Goudoever en H. Schierbeek, Neonatologie), het UMC Utrecht (Dr H. Arets, Longziekten) en het AMC (Dr M. Benninga, Gastroenterologie; Dr RR. van Rijn, Radiologie).

De studies onder 3 werden gefinancierd door zorgorganisatie ASVZ te Sliedrecht, en verricht in samenwerking met het Erasmus MC Sophia (Dr A.M. Boot, Kinderendocrinologie (later UMC Groningen) en Dr GCB Bindels-de Heus, Algemene Kindergeneeskunde), het AMC (Dr RR van Rijn, Radiologie), en perifere kinderspoliniken in Zuidwest Nederland (SA de Man, Amphia Ziekenhuis Breda, WAR Huijbers, Beatrix Ziekenhuis Gorinchem).

Studie 4 werd gefinancierd door zorgorganisatie Ipse de Bruggen en Nuts Ohra en grotendeels uitgevoerd in Ipse de Bruggen; daarnaast verleende een reeks fysiotherapeuten in diverse zorgorganisaties medewerking.

5. Resultaten

Hier worden de belangrijkste resultaten kort samengevat.

5.1 Prevalenties, onderliggende oorzaken en associaties (Tabel 1)

Longontstekingen

In de loop van een follow-up van 18 maanden kreeg 32% van de 194 kinderen tenminste één longontsteking en 11% meerdere (recidiverend). De totale incidentie was 35 per 100 kindjaren (95%-betrouwbaarheidsinterval 28-43), terwijl dat bij niet-gehandicapte kinderen in huisartspraktijken 2-8 per 100 kindjaren was (Calis et al, nog ongepubliceerd).

Oorzaken van de longontstekingen

Kinderen met ernstige meervoudige beperkingen kunnen astma hebben, of chronische obstructieve longziekte als gevolg van irritatie van de luchtwegen door voedsel of maagzuur. Voor een betrouwbare diagnose is meting van de longfunctie vereist. Over chronische obstructieve longproblemen hebben wij helaas geen betrouwbare informatie verkregen, omdat de gebruikte longfunctiemeting in deze groep weliswaar goed toepasbaar was, maar onvoldoende betrouwbaar bleek (meerdere metingen bij hetzelfde kind gaven verschillende uitkomsten) (Veugeliers et al) (zie §5.2).

Onze analyse heeft getoond dat verslikking als gevolg van de zeer veel voorkomende slikstoornissen verreweg de belangrijkste oorzaak is van de vele longontstekingen (Calis et al, nog ongepubliceerd). In zo'n geval wordt de ontsteking niet (in eerste instantie) veroorzaakt door een virus of bacterie, maar door irritatie van speeksel voedselbestanddelen in de longen.

Reflux van maagzuur komt daar nog bovenop: door verslikken van de omhoog komende maaginhoud en irritatie van de keel kan die ook leiden tot voedsel en maagzuur in de luchtwegen, met name als het kind plat ligt. Het (extra) effect hiervan op longontstekingen konden wij echter niet objectief vaststellen, omdat bij de meeste kinderen geen zuurgraadmeting mocht/kon worden verricht. Wel hadden kinderen die al sondevoeding kregen wegens ernstige slikproblemen, nog steeds significant meer longinfecties; dit zou deels kunnen wijzen op reflux, maar ook op gedeeltelijke voedseltoediening door de mond en op andere oorzaken van longinfecties.

Ernstige scoliose levert een extra bijdrage aan longinfecties. Dit is geen nieuws en heeft te maken met druk op de longen door de vergroeide wervelkolom, met als gevolg onvoldoende ventilatie (Calis et al, nog ongepubliceerd).

Onze verwachting dat een slechte voedingstoestand zou bijdragen aan de gevoeligheid voor infecties werd door dit onderzoek niet bevestigd. Echter, zoals in §5.2 wordt toegelicht, de door ons toegepaste meetmethode leidde tot een onderschatting van de voedingstoestand (Rieken et al, 2010).

Voedingsinname

De ouders en dagcentra hielden een week lang een voedingsdagboek bij, wat merendeels zorgvuldig gebeurde. Gemiddeld over de hele groep was de inname van calorieën, calcium, en de vitamines A, D, B1 en B6 aanzienlijk lager dan door het Voedingscentrum werd aanbevolen, terwijl de consumptie van eiwit en B12 gemiddeld juist aanzienlijk hoger was. Het caloriegebruik had geen relatie met slikstoornissen of het gebruik van een voedingssonde (Calis et al, 2010). De meerderheid van de kinderen kreeg minder water binnen dan aanbevolen (86,5%) en 53% kreeg te weinig vezels (Veugelers et al, 2010).

Voedingstoestand

Deze werd gemeten met huidplooidiktes. Bij 14% van de kinderen werd ondervoeding vastgesteld (te lage som van vier huidplooidiktes ($Z\text{-score} \leq -2$) en bij 1% overvoeding ($Z\text{-score} \geq +2$) (Calis et al, 2010). Echter, die 14% waren vermoedelijk niet allemaal echt ondervoed: later is in nieuw onderzoek vastgesteld, dat meting van huidplooidiktes in deze groep kinderen een onderschatting geeft van de voedingstoestand, mogelijk als gevolg van een afwijkende verdeling van het onderhuids vet (Rieken et al, 2010) (zie §5.2).

Over de voedingstoestand hebben wij dus helaas nog geen valide epidemiologische informatie; daardoor konden wij niet statistisch checken welke onderliggende oorzaken vooral bijdragen aan een slechte voedingstoestand.

Slikstoornissen

Een matige of ernstige slikstoornis werd door middel van gestandaardiseerde observatie door getrainde logopedisten (Dysphagia Disorder Survey) vastgesteld bij 76% van de kinderen, terwijl 15% sondevoeding kreeg vanwege zeer ernstige slikproblemen (Calis et al, 2008). Daaruit zou geconcludeerd kunnen worden dat vrijwel al deze kinderen meer of minder ernstige slikstoornissen hebben. Slechts 31% van de ouders van kinderen met een matige of ernstige slikstoornis hadden tevoren gerapporteerd dat zij vaak of altijd problemen hadden met het eten geven. Dit zou erop kunnen wijzen dat ouders het niet herkennen of er bij voorbaat vanuitgaan dat hun gehandicapte kind moeilijker eet dan zijn broertjes en zusjes.

Reflux van maagzuur

Een meerderheid van de ouders vond de diagnostiek van reflux met pH-metrie (24-uurs zuurmetingen via een buisje in de slokdarm) te belastend voor hun kind, en gaf daarvoor geen toestemming, terwijl het ook niet altijd lukte. Wij hebben hierover dus geen valide prevalentiegegevens verkregen. Van de 194 kinderen slikten er bij aanvang van de studie 56 maagzuurremmers (28%).

Van de 25 kinderen bij wie de meting wel goed lukte, hadden er 14 pathologische reflux; daarvan werden acht al behandeld met maagzuurremmers en zes niet. Omgekeerd hadden vijf kinderen die

maagzuurremmers gebruikten, geen pathologische reflux (de medicatie werd enkele dagen voor de zuurgraadmeting gestaakt). De ouders hadden tevoren een vragenlijst ingevuld met mogelijke symptomen van reflux: braken, rumineren, laag gewicht naar lengte, hikken, achterover strekken, voeselweigering, slecht slapen, zure adem. Geen van die symptomen bleek in deze zeer kleine groep significant gerelateerd aan de aanwezigheid van pathologische reflux (Calis et al, ongepubliceerd). Overigens bleek dat onze presentaties over het onderzoek in de voorbereidingsfase ertoe hadden geleid, dat kinderartsen zich meer bewust werden van het belang van diagnostiek en behandeling van reflux bij deze patiëntjes, zodat er – zoals wij van ouders hoorden - tijdens de studie al meer behandeling plaatsvond dan tevoren. Strikt wetenschappelijk gezien ongewenst, maar voor de praktijk een verheugend bij-effect.

Chronische obstipatie

Laxeermiddelen werden gebruikt door 54% van de kinderen. Van degenen die geen laxermiddelen gebruikten, had 6% chronische obstipatie en van degenen die wel laxermiddelen gebruikten, had 64% nog steeds obstipatie. Vreemd genoeg bleek, dat inname van de hoeveelheid water of vezels geen verband had met de ontlastingsfrequentie (Veugelers et al, 2010). Er is dus waarschijnlijk vooral sprake van een vertraagde darmwerking door neurologische oorzaken.

Botkwaliteit

Bij 48% van 95 kinderen met ernstige meervoudige beperkingen, geworven via vier kinderopklinieken, werd met automatische radiogrammetrie van een handfoto een te lage botkwaliteit gediagnostiseerd. Zoals te verwachten was, hing dit sterk samen met de mate van mobiliteit en het gebruik van anti-epileptica (Mergler et al, ingezonden voor publikatie).

Tabel 1. Samenvatting van de belangrijkste kwantitatieve resultaten
(EMB = ernstige meervoudige beperkingen)

Aandoening		Incidenties (I) en prevalenties (P) bij kinderen met EMB (N=194) (95% betrouwbaarheidsinterval)
Longontstekingen (in 18 maanden)	P	≥ 1: 32% ≥ 2: 11%
	I	35/100 kindjaren (28-43)
Verminderde longfunctie (MicroRint)		Geen valide informatie (test onvoldoende stabiel)
Voedingstoestand (4 huidplooien)		Geen valide informatie (meetmethode onderschat totaal lichaamsvet)
Slikstoornissen (DDS)	P	Licht 8% Matig of ernstig 76% Zeer ernstig (sondevoeding) 15%
Reflux van maagzuur (pH-metrie)	P	14 van 25 gemeten kinderen Verder geen valide informatie (geen toestemming, niet gelukt)
Chronische obstipatie (Rome-II criteria)	P	Laxeermiddelen 54% Geen laxeermiddel: 6% obstipatie Wel laxeermiddel: 64% obstipatie
Lage botkwaliteit (automatische radiogrammetrie handfoto)	P	48%

5.2 Bruikbare en valide diagnostische methoden

In het algemeen was ons uitgangspunt, dat de diagnostische metingen goed toepasbaar moesten zijn in deze speciale groep kinderen, dat wil zeggen dat ze objectief zijn (niet berusten op subjectieve informatie van de ouders), dat geen actieve medewerking van het kind nodig is, en dat de uitkomsten niet worden beïnvloed door bijvoorbeeld spasticiteit, onwillekeurige bewegingen, of afwijkende lichaamsmaten. Om ethische redenen, en om voldoende toestemming voor deelname te krijgen,

moesten de metingen niet of zo weinig mogelijk belastend zijn en op de eigen lokatie van het kind uitgevoerd kunnen worden. Dit is dus voor wetenschappelijk onderzoek strenger dan voor individuele toepassing in de praktijk. Verder moesten de metingen betrouwbaar en valide zijn in deze groep.

Tabel 2 Overzicht van de bevindingen op het gebied van diagnostische methoden

<i>Longfunctie:</i> - Meting met interruptietechniek en normaal doorademen goed toepasbaar, inclusief reversibiliteit, maar MicroRint op individueel niveau onvoldoende reproduceerbaar¹ <i>Risico op verslikken</i> - Dysphagia Disorder Survey (DDS) door getrainde logopedisten goed toepasbaar; classificatie kan beter en validiteit niet bekend² <i>Voedingstoestand:lichaamssamenstelling</i> - Huidplooiemeting redelijk toepasbaar maar onvoldoende valide door andere verdeling onderhuids vet³ - Bij DEXA vaak verstorende factoren⁴ - Bioelektrische impedantie analyse (BIA) goed toepasbaar en valide met door Rieken aangepaste formule voor totaal lichaamswater³ <i>Energieverbruik</i> - Bestaande omrekeningsformules, gebaseerd op leeftijd, lengte en gewicht, geven overschatting³ - Schofield formule op basis van gewicht, aangevuld met hoeveelheid beweging en GMFCS-niveau, geeft valide resultaat³	<i>Reflux van maagzuur</i> - PH-metrie wordt door ouders vaak als te belastend gezien, mislukt vaak, of is niet interpreteerbaar⁵ <i>Chronische obstipatie</i> - Symptoomdiagnostiek met toepasbare items uit de pediatrische Rome-III criteria, aangevuld met laxantiagebruik, voldoen goed⁶ <i>Botkwaliteit</i> - Bij DEXA vaak verstorende factoren⁴ - Hielbot-echo goed toepasbaar maar niet altijd goed interpreteerbaar door voetmisvorming of extreme waarden⁷ - Automatische radiogrammetrie van handfoto bij tweederde toepasbaar en interpreteerbaar; problemen door contracturen; aanpassing aan botleeftijd is noodzakelijk⁸ <i>Motorische vaardigheden</i> - Movakic bevalt in de praktijk goed, is toepasbaar, betrouwbaar en gevoelig voor verandering⁹
--	--

1.Veugelers et al, 2006; 2.Calis et al, 2008; 3.Rieken et al, 2011; 4.Mergler et al, 2012; 5.Calis et al, ongepubliceerd; 6.Veugelers et al, 2010; 7.Mergler et al, 2010; Mergler et al, ingezonden; 9.Mensch et al, ingezonden

Longfunctiemeting

Hiervoor werd door ons een methode toegepast die is ontwikkeld voor babies en peuters en die draagbaar is, waardoor in de dagcentra en de scholen gemeten kon worden: MicroRint (Veugelers et al, 2006). Deze methode, die tijdens normaal ademen de luchtwegweerstand meet met een interruptietechniek, bleek succesvol toepasbaar bij 73% van de deelnemers en bij 63% ook goed herhaalbaar na inademen van een luchtwegverwijder. Echter, de reproduceerbaarheid van de metingen, getest bij 35 kinderen, bleek matig, zowel na een uur (ICC 0,58) als 2 weken later (ICC 0,56) (Veugelers et al, ongepubliceerd). Omdat inmiddels is gebleken dat dit ook het geval is in andere patiëntengroepen, wordt tegenwoordig liever gebruik gemaakt van impuls oscillometrie (IOS), die qua belasting voor de patiënt op hetzelfde neerkomt als MicroRint en een betere reproduceerbaarheid heeft.

Voor jonge kinderen ontwikkelde longfunctiemetingen op basis van de interruptietechniek zijn in principe goed toepasbaar bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen. Dit kan van pas komen voor objectieve evaluatie van behandel-effecten in de klinische praktijk en in effectstudies. De reproduceerbaarheid van MicroRint is echter onvoldoende. Voor IOS en nieuwere methoden moet de reproduceerbaarheid in deze groep getoetst worden. Zolang (nog) geen draagbare apparatuur beschikbaar is, moet het onderzoek gebeuren in een longfunctiecentrum.

Voedingstoestand (lichaamssamenstelling) en energieverbruik

In het algemeen wordt de voedingstoestand bij kinderen gemeten met lengte en gewicht (gewicht naar leeftijd; gewicht naar lengte). Uit eerder onderzoek was echter al bekend dat de uitkomsten bij kinderen met cerebrale verlammingen niet goed vergelijkbaar zijn met de geldende normen. Een betrouwbaardere manier om de voedingstoestand te meten, is het bepalen van de lichaamssamenstelling (hoeveelheid lichaamswater en lichaamsvet). In het algemeen wordt *DEXA* (*dual energy X-ray absorptiometry*) beschouwd als de gouden standaard hiervoor. Deze op zich weinig belastende methode is doorgaans alleen in ziekenhuizen beschikbaar. Mergler en Rieken hebben vastgesteld bij 27 kinderen met ernstige meervoudige beperkingen, dat het resultaat nogal eens moeilijk te beoordelen is door veel bewegen tijdens de meting (41%) of andere factoren die beoordeling bemoeilijken, zoals maagsondes (52%), scoliose (37%) en contracturen (18,5%), (Mergler, Rieken et al, 2012).

Andere veelgebruikte meetmethoden voor de lichaamssamenstelling, die weinig belastend zijn en op de eigen lokatie toegepast kunnen worden, zijn *huidploidiktemeting* en *bioelectrische impedantie analyse (BIA)*. Beide methoden zijn goed toepasbaar gebleken bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen (Veugelers et al, 2006; Rieken et al, 2011).

De uitkomst van huidploidiktemeting is een schatting van de totale hoeveelheid lichaamsvet; hiervoor zijn twee verschillende omrekeningsformules beschikbaar.

De uitkomst van BIA is juist een schatting van de totale hoeveelheid lichaamswater, ook op basis van een omrekeningsformule. De hoeveelheid lichaamswater wordt vervolgens met uit de literatuur beschikbare leeftijdsgebonden omrekeningsformules omgezet naar vetvrije massa, waar ook bot- en spiermassa een onderdeel van zijn. Als die wordt afgetrokken van het lichaamsgewicht heb je de totale hoeveelheid lichaamsvet.

Rieken heeft bij 61 kinderen met ernstige meervoudige beperkingen de validiteit van huidplooidikte en BIA onderzocht, door ze te vergelijken met de zeer nauwkeurige gouden standaard ‘dubbel-gelabeld water’, een methode die goed toepasbaar bleek in deze groep, maar veel te duur en bewerkelijk is voor de praktijk (Rieken et al, 2011).

Hieruit bleek dat huidplooidiktemeting bij deze kinderen tot een onderschatting van de hoeveelheid lichaamsvet leidt en dus niet valide is, ook niet met een aangepaste omrekeningsformule. Dit heeft vermoedelijk dus te maken met de andere verdeling van het onderhuids vet.

BIA, in liggende houding toepasbaar bij alle kinderen, bleek met de bestaande omrekeningsformule te leiden tot een overschatting van de hoeveelheid lichaamswater (en dus ook een onderschatting van het lichaamsvet). Een aangepaste omrekeningsformule, waarin tevens de totale lichaamslengte (die in geval van contracturen en scoliose moeilijk te meten is) werd vervangen door de onderbeenlengte, bleek in dit geval wel tot een goede voorspelling van de hoeveelheid lichaamswater te leiden (Rieken et al, 2011).

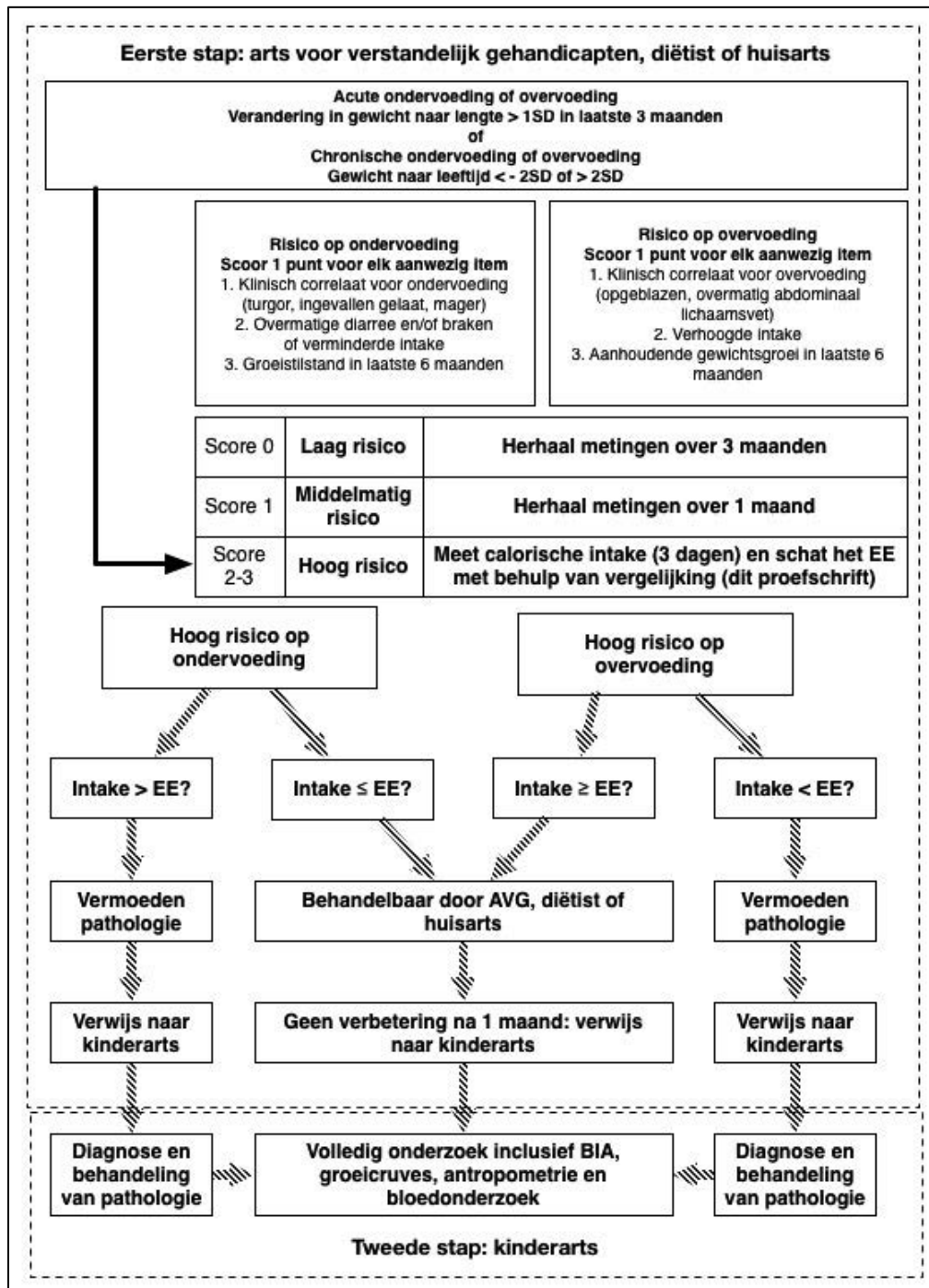
Voor een goed dieetadvies is het ook nodig, inzicht te hebben in het energieverbruik van deze motorisch ernstig gehandicapte kinderen. Het energieverbruik in rust kan objectief worden gemeten met indirecte calorimetrie en het totaal energieverbruik met de dubbel-gelabeld watermethode. Omdat dit voor de dagelijkse praktijk te ingewikkelde methoden zijn, zijn op basis hiervan voor de algemene kinderopopulatie omrekeningsformules ontwikkeld, gebaseerd op leeftijd, lengte en gewicht. Uit eerder onderzoek bij kinderen met cerebrale paresen was al gebleken dat die als gevolg van hun beperktere motoriek een lager energieverbruik hebben dan andere kinderen. Rieken heeft dit herhaald bij de onderzoeksgroep van 61 ernstige meervoudige beperkingen (Rieken et al, 2011). Indirecte calorimetrie bleek bij hen vaak onvoldoende toepasbaar of betrouwbaar. Met de dubbel-gelabeld watermethode werd aangetoond, dat in deze groep alle bestaande omrekeningsformules leiden tot een overschatting van het totaal energieverbruik. Het totaal energieverbruik, gemeten met de Schofield formule gebaseerd op gewicht, maar door Rieken aangevuld met de hoeveelheid beweging (actigrafie) en het niveau van mobiliteit (GMFCS 4 of 5), kwam echter gemiddeld goed overeen met het resultaat van de gouden standaard.

In de klinische praktijk voor kinderen met ernstige meervoudige beperkingen is bioelectrische impedantiemetrie (BIA) met de door Rieken ontworpen omrekeningsformule op dit moment het instrument van keuze voor meer objectieve diagnostiek van de lichaamssamenstelling.

De omrekeningsformule, die met de uitkomst van de Schofield formule als basis aanpassingen doet voor hoeveelheid beweging en GMFCS score, is voor diëtisten een geschikt hulpmiddel om meer objectief het energieverbruik te bepalen.

Rieken heeft in zijn General Discussion een voorlopige richtlijn geformuleerd voor de diagnostiek van over- en ondervoeding in deze groep (Figuur 1).

Figuur 1. Voorlopige richtlijn voor diagnostiek van de voedingsstoestand (lichaamssamenstelling) bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen (EE = energieverbruik, *energy expenditure*)



Slikstoornissen

Het eigenlijke doel van slikdiagnostiek is vaststellen of er sprake is van verslikking, d.w.z. of er voedsel of speeksel in de luchtwegen terecht komt. Hiervoor zijn twee methoden beschikbaar: videofluoroscopie en flexibele endoscopische evaluatie slikbeweging (FEES). Bij videofluoroscopie worden in de röntgenkamer tijdens het slikken van contrastmiddel video-opnames gemaakt, terwijl

FEES bestaat uit scopie met een buisje door de neus tijdens het slikken. Mensen met verstandelijke beperkingen worden voor deze vormen van diagnostiek heel weinig verwezen, omdat die, al of niet terecht, als voor hen te belastend beschouwd worden. Dit geldt des te meer voor kinderen met ernstige meervoudige beperkingen. Daarom wordt in de zorg het slikken meestal beoordeeld door observatie van het slikken tijdens het eten, door een logopedist die op dat gebied is geschoold. In het onderzoek hebben wij gebruik gemaakt van de *Dysphagia Disorder Survey (DDS)*, een gestandaardiseerde observatie, voor mensen met verstandelijke beperkingen ontwikkeld door Joan Sheppard in New York, inclusief een door haar ontworpen classificatiesysteem van de ernst van slikstoornissen. Sheppard is overgekomen naar Nederland om de deelnemende logopedisten hierin te scholen; inmiddels zijn veel logopedisten in de zorg nageschoold en wordt de methodiek breed toegepast, ook in ons latere onderzoek Gezond Ouder (GOUD).

Echter, over de DDS is het laatste woord nog niet gezegd. Hoewel personen met een hoog risico op verslikken hiermee worden geïdentificeerd, is niet bekend hoeveel van hen zich inderdaad verslikken, en omgekeerd hoeveel mensen die zich verslikken worden gemist. Het is bekend dat kinderen met cerebrale verlammingen zich vaak verslikken zonder dat je dat kunt zien aan hoesten of andere reacties. Tot nu toe heeft niemand zich gewaagd aan valideringsonderzoek met videofluoroscopie of FEES als gouden standaard, zeker niet bij de kinderen waar we het hier over hebben. Verder kan de classificering van de ernst verbeterd worden; wij zijn voornemens dit samen te doen met Dr Hanneke Kalf, senior onderzoeker-logopedist, afdeling Revalidatiewetenschap UMC Radboud te Nijmegen.

Omdat videofluoroscopisch onderzoek van het slikken en FEES voor kinderen met ernstige meervoudige beperkingen belastend zijn en omdat, gezien de resultaten van deze studie, in deze groep screenende diagnostiek vereist is, zijn wij voornamelijk aangewezen op expert observatie. De gestandaardiseerde Dysphagia Disorder Survey is goed toepasbaar door getrainde logopedisten en daarmee een goed hulpmiddel om meer systematisch hoog-risico gevallen te identificeren. Het systeem voor classificatie van de ernst kan verbeterd worden, terwijl validering ten opzichte van videofluoroscopie of FEES beter in een minder gehandicapte groep kan geschieden. Niettemin kan verwijzing voor videofluoroscopie voor sommige kinderen van belang zijn.

Reflux van maagzuur

Reflux van maagzuur komt in de algemene populatie regelmatig voor, zeker op latere leeftijd. Bij de diagnostiek wordt doorgaans afgestaan op klachten van zuurbranden of slokdarmkrampen en het effect van maagzuurremmers. Objectieve diagnostiek bestaat uit pH-metrie, meting van de zuurgraad in de slokdarm, terwijl scopie van de slokdarm als doel heeft om vast te stellen of sprake is van irritatie of ontsteking. Beide methoden worden gezien als belastend voor mensen met verstandelijke beperkingen. Hoewel in de multidisciplinaire NVAVG-richtlijn 'Diagnostiek en behandeling van gastro-oesophageale

refluxziekte bij verstandelijk gehandicapten' (juni 1999) uitgegaan wordt van screening met pH-metrie, en AVGs daarvoor in het verleden getraind zijn, wordt dit in de praktijk zelden toegepast. Dat ouders het voor hun kinderen met meervoudige beperkingen ook te belastend vonden, bleek uit het lage aantal toestemmingen voor pH-metrie, terwijl ogenschijnlijk geslaagde metingen nogal eens niet inpreteerbaar bleken.

Over de diagnostiek van reflux van maagzuur bij kinderen en volwassenen met verstandelijke beperkingen is het laatste woord nog niet gesproken. Voorlopig is het van belang, zeer attent te zijn op mogelijke symptomen, waarmee in elk geval de ernstiger gevallen geïdentificeerd zullen worden, en in geval van twijfel op proef maagzuurremmers voor te schrijven. Bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen zal dit vaak al in de eerste levensjaren het geval zijn.

Obstipatie

Hiervoor gebruikte Rebekka Veugelers een symptoomdiagnose, zoals ook de internationale standaard is bij andere kinderen (PACCT definitie (Benninga et al, 2005), Rome-II criteria (Rasquin-Weber et al, 1999)). Uit deze definities en een definitie voor volwassenen met verstandelijke beperkingen (Böhmer et al, 2001) selecteerde zij de in deze groep toepasbare symptomen en voegde daaraan het gebruik van laxantia toe. Omdat de ethische commissie voor deze studie geen rectaal onderzoek toestond, moest dat vervangen worden door palpatie van de buik. Er werd 14 dagen door de ouders een poepdagboek bijgehouden. Deze aanpak bleek goed toepasbaar. Wij adviseren, in de klinische praktijk het rectaal toucher zo mogelijk wel toe te passen omdat dat belangrijke extra informatie geeft (Veugelers et al, 2010). In 2009 is door het CBO een nieuwe Nederlandse richtlijn 'Obstipatie bij kinderen van 0 tot 18 jaar' gepubliceerd. Onze adviseur Dr Mark Benninga (Kindergastro-enterologie AMC) heeft daar de kinderen met een verstandelijke beperking ingebracht. Er bestond binnen de werkgroep consensus om de toepasbare Rome-III criteria ook bij deze kinderen als uitgangspunt te nemen.

Diagnose van obstipatie bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen:

*Grote faecesmassa palpabel in de buik of het rectum
en/of*

twee of meer van de volgende kenmerken gedurende 2 weken:

- *scybala, faeces als kiezels bij de meeste defaecaties*
- *defaecatiefrequentie lager dan driemaal per week*
- *gebruik van laxemiddelen of handmatige verwijdering*

Botkwaliteit

De gouden standaard voor diagnostiek van de botkwaliteit is *DEXA*, die ooit is gevalideerd aan de hand van het optreden van botbreuken. Hoewel, zoals eerder gemeld, de kwaliteit van de metingen bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen te lijden kan hebben van bewegen of andere versturende factoren (Mergler et al, 2012), blijft *DEXA* ook bij hen een mogelijkheid. Omdat echter de vereiste specifieke software voor de beoordeling bij kinderen in veel ziekenhuizen niet aanwezig is, blijft dit vooral een optie in academische ziekenhuizen.

Sandra Mergler heeft daarom in deze groep de toepasbaarheid van twee andere methoden onderzocht: kwantitatieve echometing van het hielbot, en automatische radiogrammetrie van een röntgenfoto van de hand.

Echo van het hielbot (Lunar Achilles type Insight, GE Healthcare) heeft als voordeel dat het apparaat draagbaar is, en is op lokatie getoetst in een geselecteerde groep van 151 volwassenen en kinderen met lichte tot ernstige verstandelijke beperkingen in de intramurale zorg. De meting lukte bij 95%, was interpreteerbaar bij 92%, bleek niet of nauwelijks tot stress te leiden bij 90%, en duurde inclusief voorbereiding zelden meer dan 10 minuten. In de subgroep van 41 deelnemers met een ernstige meervoudige beperking was bij 33 de meting toepasbaar en bij 25 interpreteerbaar. In acht gevallen was het resultaat ‘out of range’, wat wijst op een extreem hoge of extreem lage botmassa, of op ernstige misvorming van de voet (Mergler et al, 2010).

Automatische radiogrammetrie van een handfoto is gebaseerd op een digitale röntgenfoto van de hand, en dus aan het ziekenhuis gebonden. Met specifieke software (BoneXpert ©) wordt op basis van de drie middelste middenhandsbeentjes de botkwaliteit bepaald, gebruik makend van referentiewaarden bij gezonde kinderen naar leeftijd en geslacht. De methode werd toegepast bij 95 kinderen met ernstige meervoudige beperkingen in vier kinderopklinieken, en was succesvol bij 60 kinderen. Ernstige handcontracturen waren de belangrijkste oorzaak van mislukking. Het bleek dat de botleeftijd, die met deze software ook automatisch wordt bepaald, bij 64% van de kinderen meer dan een jaar verschilde met de kalenderleeftijd; meestal is dat vertraagde rijping. Hiermee moet dus rekening gehouden worden bij de keuze van de referentiewaarde. Dat laatste geldt overigens dus ook voor *DEXA* en echo van het hielbot (Mergler et al, ingezonden voor publikatie).

In het academisch ziekenhuis is DEXA geschikt voor meting van de botdichtheid bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen, mits er niet teveel versturende factoren zijn. Automatische radiogrammetrie van een handfoto is bij het merendeel van deze groep toepasbaar, en vereist eveneens een gang naar het ziekenhuis. Wel moet bij het maken van de handfoto extra aandacht besteed worden aan de positie van de hand. Deze methode is goedkoper dan de dure DEXA. Daarom is automatische radiogrammetrie van een handfoto voor de kinderarts de eerste keuze. In het Erasmus MC Sophia en het Leids UMC wordt hiermee inmiddels gewerkt.

Echomiting van het hielbot is eveneens toepasbaar bij het merendeel, en heeft als voordeel dat het apparaat draagbaar is, zodat op de eigen lokatie een diagnose gesteld kan worden. Op dit moment zijn er alleen normwaarden voor 18+.

Motorische vaardigheden

Kinderfysiotherapeut Sonja Mensch heeft sinds 2006 gewerkt aan de ontwikkeling van Movakic, een instrument voor fysiotherapeuten om gedetailleerd motorische vaardigheden te meten bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen. Dit nadat zij samen met een expertgroep van ervaren fysiotherapeuten had vastgesteld dat bestaande instrumenten voor deze groep niet toereikend waren (Mensch et al, ingezonden voor publikatie). Doel is om de vertraagde en zeer beperkte motorische ontwikkeling van deze kinderen objectiever dan nu het geval is vast te leggen en subtiele behandel-effecten te meten, als basis voor effectieve zorg. Bij het ontwerp heeft de expertgroep een centrale rol gespeeld, terwijl fysiotherapeuten in andere zorgorganisaties hebben meegewerkt aan het onderzoek van de toepasbaarheid en betrouwbaarheid, die beide goed zijn (interbeoordelaarsbetrouwbaarheid ICC 0.94, test-hertestbetrouwbaarheid 0,95) (Mensch et al, ingezonden voor publikatie). In longitudinaal onderzoek is een goede responsiviteit (gevoeligheid voor veranderingen) aangetoond (Mensch et al, in voorbereiding). Het instrument voldoet duidelijk in een behoefte, ook internationaal, dus er komt ook een Engelse versie. Movakic komt als praktijkversie dit jaar beschikbaar voor fysiotherapeuten, evenals een tweedaagse training.

5.3 Visuele stoornissen

Nog een enkel woord over visuele stoornissen in deze groep kinderen, hoewel die door ons niet specifiek zijn onderzocht. Onderzoek van de gezichtsscherpte is bij hen goed mogelijk met behulp van Teller kaarten. Echter, omdat bij deze kinderen in alle gevallen sprake is van ernstige hersenschade of een ernstige ontwikkelingsstoornis van de hersenen, is ook te verwachten dat cerebrale visuele stoornissen vaak zullen voorkomen. Deze kunnen bijvoorbeeld bestaan uit problemen met het herkennen van voorwerpen, gezichten of beweging (Boot et al, 2010). Normaliter worden zulke problemen gediagnostiseerd met behulp van neuropsychologische tests, waarvoor vereist is dat het kind instructies kan begrijpen en daarop duidelijk kan reageren. De door Michiel Vermaak en Fleur Boot in samenwerking met de afdeling Neurowetenschappen van het Erasmus MC ontwikkelde methode om automatisch oogbewegingen te meten als reactie op op een scherm getoonde beelden (Boot et al, 2012) wordt besproken in Bijlage 1 over de onderzoekslijn Zintuigstoornissen. Door Marlou Bosch, werkzaam bij Visio, wordt onderzoek verricht naar de toepassing van deze methodiek bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen. Over de resultaten zijn nog geen publikaties verschenen.

Een overzicht van de uiteindelijk aanbevolen diagnostische methoden wordt gegeven in Tabel 3.

Tabel 3. Overzicht van aanbevolen diagnostische methoden bij kinderen en volwassenen met ernstige meervoudige beperkingen

	Diagnostische methode
Longfunctie	Impuls oscillometrie (IOS) (longfunctielab)
Lichaamssamenstelling	Bioelectrische impedantiemetrie (BIA) met aangepaste Penscharz formule voor total body water (TBW): $TBW (BIA) = TBW = \frac{2.09 + (5.44 \times \text{tibialengte}^2)}{\text{weerstand (Rz)}} + (0.19 \times \text{gewicht})$ <i>Tibialengte in cm, gewicht in kg, weerstand in Ω</i>
Energieverbruik TEE = total energy expenditure	Bereken BMR SCHO-WT naar leeftijd met originele Schofield formule voor gewicht in MJ $TEE = (1.1 \times BMR \text{ SCHO-WT} \times 238.8) - 280 \text{ kcal}$ <i>Veel beweging: 222 kcal toevoegen</i> <i>GMFCS = 4 (in tegenstelling tot 5): 431 kcal toevoegen</i> <i>MJ = macrojoule</i> <i>BMR = basaalmetabolisme</i> <i>GMFCS = gross motor functioning classification system</i>
Slikstoornissen	Dysphagia Disorder Survey (DDS) door getrainde logopedist
Reflux van maagzuur	?
Chronische obstipatie	Rome-III criteria: <i>Grote faecesmassa palpabel in de buik of het rectum</i> <i>en/of twee of meer van de volgende kenmerken gedurende 2 weken:</i> - <i>scybala, faeces als kiezels bij de meeste defaecaties</i> - <i>defaecatiefrequentie lager dan driemaal per week</i> <i>gebruik van laxermiddelen of handmatige verwijdering</i>
Lage botkwaliteit	Hielbot echo (Lunar Achilles) Automatische radiogrammetrie handfoto
Motorische vaardigheden	Movakic door getrainde kinderfysiotherapeut

6. Implementatie

Uit de kleine denktank van kinderartsen rond het onderzoek van Sandra Mergler is inmiddels het Regionale Netwerk voor kinderen met een ontwikkelingsstoornis Zuidwest Nederland voortgekomen, onder voorzitterschap van Dr Karen Bindels-de Heus. De kerngroep, die bestaat uit 1/3 kinderartsen, 1/3 AVGs en 1/3 kinderneurologen, kinderrevalidatie-artsen en kinder- en jeugdpsychiaters, houdt elke 3 maanden een overleg- of scholingsbijeenkomst, terwijl eenmaal per jaar een grote nascholingsavond wordt georganiseerd voor alle leden. De groep streeft ernaar, in november 2015 een gezamenlijk Webboek Zorg voor Kinderen met Ernstige Meervoudige Beperkingen te lanceren.

Publikaties

- Calis EA, Olieman JF, Rieken R, Penning C. Impact of malnutrition on gastrointestinal disorders and gross motor abilities in children with cerebral palsy. *Brain Dev* 2007;29:534.
- Calis EA, Veugelers R, Sheppard JJ, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Dysphagia in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability. *Dev Med Child Neurol*. 2008;50:625-30.
- Calis EA, Veugelers R, Rieken R, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Energy intake does not correlate with nutritional state in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability. *Clin Nutr* 2010;29:217-21.
- Calis EA, Veugelers R, Bouquet J, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Pathological gastro-oesophageal reflux in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability is often undetected. Unpublished.
- Calis EA, Veugelers R, Merkus PJFM, Arets HGM, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Lower respiratory tract infections in children with severe generalized cerebral palsy and intellectual disability. In preparation.
- Mensch S, Penning C, Watanabe K, Lenke LG, Daubs MD, et al. Is spine deformity surgery in patients with spastic cerebral palsy truly beneficial? *Spine* 2009;34:2222-32. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2010;35:E621; author reply E621-2.
- Mensch SM, Rameckers EAA, Echteld MA & Evenhuis HM. Instruments for the evaluation of motor abilities for children with severe disabilities: a systematic review of the literature. Ingezonden voor publikatie.
- Mensch SM, Rameckers EAA, Penning C & Evenhuis HM. Design of a new instrument to evaluate motor abilities of children with severe multiple disabilities: MOVAKIC. Ingezonden voor publikatie.
- Mensch SM, Rameckers EAA, Echteld MA & Evenhuis HM. Reliability of Movakic; an instrument to evaluate motor abilities in children with severe multiple disabilities. In voorbereiding.
- Mergler S et al. Epidemiology of low bone mineral density and fractures in children with severe cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol* 2009;51:773-8.
- Mergler S, Löbker B, Evenhuis HM, Penning C. Feasibility of quantitative ultrasound measurement of the heel bone of people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2010;31:1283-90.

- Mergler S et al. Lumbar spine and total body dual x-ray absorptiometry in children with severe neurological impairment and intellectual disability: a pilot study of artefacts and disrupting factors. *Pediatr Radiol*, 2012;42:574-83.
- Mergler S, De Man SA, Boot AM, Bindels-de Heus GCB, Huijbers WAR, Van Rijn RR, Penning C & Evenhuis HM. Automated radiogrammetry measuring bone quality and bone maturation in severely disabled children. Ingezonden voor publikatie.
- Mergler S, De Man SA, Boot AM, Bindels-de Heus GCB, Huijbers WAR, Van Rijn RR, Schouten LJ, Penning C & Evenhuis HM. Bone quality and its determinants in children with severe neurological impairment and intellectual disability. Ingezonden voor publikatie.
- Penning C & Rieken R. Correspondence on 'Determination of basal metabolic rate and body composition with bioelectrical impedance method in children with cerebral palsy. *J Child Neurol* 2010;25:128-9.
- Penning C, Linden JH van der, Tibboel D, Evenhuis HM. Is the temporal artery thermometer a reliable instrument to detect fever in children? *J Clin Nurs*. 2011;20:1632-9.
- Rieken R, Calis EA, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Validation of skinfold measurements and bioelectrical impedance analysis in children with severe cerebral palsy: a review. *Clin Nutr*. 2010;29:217-21.
- Rieken R, Goudoever JB van, Schierbeek H, Willemsen SP, Calis EA, Tibboel D, Evenhuis HM, Penning C. Measuring body composition and energy expenditure in children with severe neurological impairment and intellectual disability. *Am J Clin Nutr* 2011;94:759-66.
- Schierbeek H, Rieken R, Dorst KY, Penning C, Goudoever JB van. Validation of deuterium and oxygen18 in urine and saliva samples from children using on-line continuous spectrometry. *Rapid Commun Mass Spectrom* 2009;23:3549-54.
- Veugelers R, Calis EAC, Penning C, Verhagen AP, Bernsen RMD, Bouquet J, Benninga MA, Merkus PJFM, Arets HGM, Tibboel D & Evenhuis HM. A population-based nested case-control study on recurrent pneumonias in children with severe generalized cerebral palsy: ethical considerations of the design and representativeness of the study sample. *BMC Pediatrics* 2005;5:25.
- Veugelers R, Penning C, Gulik ME van, Tibboel D & Evenhuis HM. Feasibility of bioelectric impedance analysis in children with a severe generalized cerebral palsy. *Nutrition* 2006;22:16-22.
- Veugelers R, Penning C, Grootscholten SPJ, Merkus PJFM, Arets HGM, Rieken R, Brussee JE, Jilderda-Janssen M, Tibboel D & Evenhuis HM. Should we use criteria or eyeballing to reject post-interruption tracings? *Pediatric Pulmonology* 2006;4:937-46.
- Veugelers R, Penning C, Rieken R, Merkus PJFM, Arets HGM, Bernsen R, Tibboel D & Evenhuis HM. Feasibility and outcome of the interrupter technique in pediatric severe generalized cerebral palsy. Unpublished.
- Veugelers R, Benninga MA, Calis EA, Willemsen SP, Evenhuis H, Tibboel D, Penning C. Prevalence and clinical presentation of constipation in children with severe generalized cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2010;52:e216-21.

- Bijlage 3

Veroudering van mensen met verstandelijke beperkingen

1. Dementie en overleving bij mensen met het Down syndroom

Het in 1998 door NWO Chronisch Zieken en het Jan Jongmans Fonds gesubsidieerd epidemiologisch onderzoek naar dementie bij mensen met het syndroom van Down heb ik destijds de dagelijkse leiding overgedragen aan Prof Dr Cock van Duijn, afdeling Epidemiologie & Biostatistiek. AVG Tonnie Coppus heeft longitudinaal onderzoek verricht bij 506 zorgeliënten met het Down syndroom, die bij aanvang van de studie 45 tot 77 jaar oud waren. AVG Margriet van Duijnen-Maas heeft een bijdrage geleverd aan de opzet van deze studie.

De deelnemers worden sinds die tijd tot heden gevolgd in hun functioneren; de gemiddelde follow-up van de overlevende deelnemers is inmiddels 15 jaar.

Het eerste doel van de studie was kwantificering van risico's op dementie en overlijden en factoren die daarop van invloed zijn. Daarnaast werd onderzoek gedaan naar perifere biochemische markers voor versnelde veroudering en dementie in deze populatie.

De belangrijkste bevindingen:

- Prevalenties en incidenties van dementie naar leeftijd en de rol daarbij van Apolipoproteïne ε4 (Coppus et al, 2006;2008).
- Net als in de algemene bevolking wordt het overlijden voorspeld door (vanzelfsprekend) de leeftijd en de aanwezigheid van dementie. Bij mensen met het Down syndroom komen daar nog enkele onafhankelijke voorspellers bij: motorische beperking, epilepsie, zintuiglijke beperkingen en luchtwegproblemen. Inmiddels zijn daar na 15 jaar follow-up ook woonomstandigheden bijgekomen (Coppus et al, ingezonden voor publikatie). In tegenstelling tot de algemene bevolking spelen risicofactoren voor hart- en vaatziekte en het mannelijk geslacht geen rol (die twee hangen met elkaar samen) (Coppus et al, 2008).
- De menopauze (overgang) treedt bij vrouwen met het Down syndroom vroeg op: gemiddeld 44 jaar (range 28-55 jaar). Vrouwen bij wie de menopauze is begonnen vóór 45 jaar worden gemiddeld eerder dement (52,5 jaar) dan vrouwen met een latere menopauze (59 jaar), en zij worden ook vaker dement. Het hormoon oestrogeen heeft dus een grote invloed (Coppus et al, 2010).
- Het aminozuur neopterine is een marker voor immuun- en ontstekingsprocessen in cellen. In deze studie is vastgesteld, dat hoge neopterine plasmaspiegels bij mensen met het Down syndroom een onafhankelijke voorspeller zijn van dementie (Coppus et al, 2007;2009). De eveneens verhoogde plasmaspiegels van andere aminozuren suggereren een verhoogde productie van stikstofoxide gedurende de ontwikkeling van dementie (Coppus et al, 2007;2010).

Deze voortgaande studie is nog steeds wereldwijd de grootste longitudinale studie bij volwassenen met het Down syndroom die op deze wijze gevolgd worden en waar nog steeds over wordt gepubliceerd (Coppus et al, 2012; Ibrahim-Vermaas et al, 2012; Weksler et al, 2013; Coppus, 2013; Naudé et al, 2015; Dekker et al, 2015). Twee onderzoekers verrichten nog promotie-onderzoek als direkt en indirekt resultaat van dit onderzoek. Op het destijds opgeslagen bloed wordt ook nu nog onderzoek verricht en zal binnenkort een Genome Wide Association Study plaatsvinden.

Proefschrift

Tonnie Coppus. Predictors of dementia and mortality in Down's syndrome. Erasmus MC, 2008.

2. Gezond ouder met een verstandelijke beperking (GOUD)

Een samenhangend rapport van de opzet en resultaten van de GOUD-studie is te downloaden via onbeperktgezond.nl – producten – rapporten.

Gedurende 2008 – 2012 is de eerste fase van de studie Gezond ouder met een verstandelijke beperking (GOUD) uitgevoerd door het gelijknamig consortium, bestaande uit de zorgorganisaties Ipse de Bruggen te Zoetermeer, Abrona te Huis ter Heide, en Amarant te Tilburg, en de vakgroep Geneeskunde voor Verstandelijk Gehandicapten aan het Erasmus MC te Rotterdam.

Overkoepelende doelen van het GOUD consortium waren wetenschappelijke kennisvermeerdering, identificatie van blinde vlekken, specifieke deskundigheid van medewerkers, en de ontwikkeling van een academische attitude en infrastructuur, dit alles gericht op evidence-based kwaliteitsverbetering van de zorg en een betere gezondheid van mensen met verstandelijke beperkingen gedurende hun levensloop.

‘Gezond ouder’ werd door ons geöperationaliseerd vanuit het perspectief van preventie.

Daarom werden drie overkoepelende thema's onderscheiden: Fysieke activiteit & Fitheid, Voeding & Voedingstoestand, en Depressie & Angst.

Hoewel deze studie de medewerking van velen en een gigantische logistiek vereiste, is dat goed verlopen, dankzij de actieve, structurele betrokkenheid van het management van de deelnemende zorgorganisaties op drie niveaus: bestuurders, stuurgroep (zorgdirecteuren) en interne coördinatoren.

2.1 Wetenschappelijke doelen:

1. Prevalenties, risicogroepen en secundaire gezondheidseffecten binnen elk thema
2. Onderlinge relaties tussen de thema's
3. Acceptatie, implementatie en gezondheidseffecten van een dagactiviteitenprogramma, gericht op stimuleren van bewegen en fitheid
4. Inzicht in de verdeling en ernst van publieke gezondheidsmaten: kwetsbaarheid, multimorbiditeit en polyfarmacie, en in factoren die daarop invloed hebben.
5. Een betrouwbaar opsporingsinstrument voor kwetsbaarheid met een goed voorspellend vermogen, voor gebruik in de praktijk van de gezondheidszorg.

2.2 Studies

1. Centraal stond een grootschalig epidemiologisch onderzoek, in een voor de cliëntenpopulatie van gespecialiseerde zorgorganisaties representatieve studiegroep van 1050 cliënten met lichte tot zeer ernstige verstandelijke beperkingen, naar de gezondheidstoestand en factoren die daarmee verbonden zijn. Dergelijk onderzoek was ter wereld nog niet verricht; enkele jaren later is een vergelijkbaar onderzoek gestart in Dublin, Ierland (toevoeging aan de TILDA studie).
2. Parallel werd een onderzoek verricht naar de effecten van een specifiek voor deze bevolkingsgroep ontworpen dagbestedingsprogramma. Het doel van dit programma was het verhogen van de lichamelijke activiteit en het onderhouden of verbeteren van de lichamelijke fitheid en de gezondheid van de deelnemers. ZonMw subsidie voor studies 1 en 2 werd verworven vanuit het programma Mensen met verstandelijke beperkingen.
3. In tweede instantie bleek, dat de verzamelde gegevens van studie 1 buitengewoon relevant materiaal waren voor onderzoek van de publieke gezondheid in deze specifieke populatie, waarnaar internationaal nog helemaal geen onderzoek werd verricht. Dit soort informatie is vooral van belang voor beleidsvoorbereiding. Hiervoor werd een onderzoek naar kwetsbaarheid opgezet, waarvoor subsidie werd verworven bij het ZonMw Nationaal Programma Ouderenzorg (NPO).

Acht onderzoekers hebben op basis van deze drie studies een proefschrift voltooid, waarvan het laatste in juni verdedigd zal worden:

1. Thessa Hilgenkamp. Physical activity and fitness in older adults with intellectual disabilities. Erasmus MC, mei 2012.
2. Heidi Hermans. Depression and anxiety in older adults with intellectual disabilities. Erasmus MC, mei 2012.
3. Ellen van de Wouw-van Dijk. Sleep and sleep-wake rhythm in older adults with intellectual disabilities. Erasmus MC, mei 2013.

4. Channa de Winter. Cardiovascular disease risk factors in older adults with intellectual disabilities. Erasmus MC, oktober 2014.
5. Alyt Oppewal. Measuring physical fitness in older adults with intellectual disabilities. Moving towards practice. Erasmus MC, oktober 2014.
6. Luc Bastiaanse. Nutrition, nutritional state and related conditions in older adults with intellectual disabilities. Erasmus MC, december 2014.
7. Marieke van Schijndel-Speet. An evidence-based physical activity and fitness programme for ageing adults with intellectual disabilities. Development, implementation and health effects. Erasmus MC, februari 2015.
8. Josje Schoufour. Frailty in people with intellectual disabilities: frequency, determinants and consequences. Erasmus MC, juni 2015.

2.3 Samenwerking

In deze studies is samengewerkt met een groot aantal professionele partijen binnen het GOUD consortium: woon- en activiteitenbegeleiders, fysiotherapeuten, bewegingsagogen, diëtisten, logopedisten, doktersassistenten en wijkverpleegkundigen, gedragskundigen en artsen. Vanuit het management waren achtereenvolgens betrokken de bestuurders Peter Razenberg, Jan Fidder, en Jan van Hoek (Ipse de Bruggen), Nico Peelen en Jan Duenk (Abrona), Ronald Helder en Marc Bindels (Amarant), de stuurgroepleden Ankie Lubbers en Marcel Schellart (Ipse de Bruggen), Margriet Euverman en Ditte van Vliet (Abrona) en Frank Brouwers (Amarant), en als interne coördinatoren Stephan Kramer, Arjen Louisse, Anemone Linthorst en Joris van Erp (Ipse de Bruggen), Ineke Bootsman (Abrona), Erwin van den Hout en Patricia Smit-Brekelmans (Amarant). Bij het dagbestedingsprogramma waren de managers dagbesteding direct betrokken: Ageeth Wildeman (Abrona), Gini Verheggen (Ipse de Bruggen) en Brigitte Verhoof (Amarant), evenals de hoofden van 10 individuele dagbestedingslokaties.

Als extern wetenschappelijk adviseurs waren de volgende collega's betrokken:

Bij het thema *Fysieke activiteit & fitheid* werd samengewerkt met copromotor Dr Ruud van Wijck (Bewegingswetenschappen, Rijksuniversiteit Groningen) en Dr Pepijn van Empelen (Maatschappelijke Gezondheidszorg Erasmus MC, nu Expertisegroep Leefstijl TNO).

Bij het thema *Voeding & Voedingstoestand* adviseerden Prof Dr Ir Lisette de Groot (Voedingswetenschappen, Wageningen Universiteit), Prof Dr Andrea Maier (Internist-ouderengeneeskunde, LUMC, nu Interne Geneeskunde i.h.b. Gerontologie, VUMC Amsterdam) en Dr Jos Wienders (Meander Medisch Centrum Amersfoort).

Bij het thema *Depressie & Angst* werd samengewerkt met Prof Dr Aartjan Beekman (Psychiatrie, VUMC Amsterdam).

Het thema *Kwetsbaarheid* was een samenwerking met Prof Kenneth Rockwood en Dr Arnold Mitnitski (Geriatric Medicine Research, Dalhousie University, Halifax, Canada).

Uitwisselingscontacten zijn ontstaan met de groep van Prof Dr Mary McCarron, die een vergelijkbaar onderzoek als het GOUD onderzoek heeft opgezet aan het Trinity College, Dublin, Ierland. De groepen hebben elkaar wederzijds bezocht, waarbij diagnostische methoden en resultaten zijn uitgewisseld.

Michael Echteld heeft in Dublin onderzoekers geschoold in het ontwikkelen van een kwetsbaarheidsindex. Mogelijk kunnen toekomstige uitkomsten gecombineerd worden.

Dr Ellen Freiburger, Friedrich-Alexander Universität Erlangen-Nürnberg, Institute for Biomedicine of Aging, Geriatrics, Duitsland, is met haar onderzoekers op bij ons werkbezoek geweest; één van haar onderzoekers heeft bij ons een systematische review verricht (Almuhaseb Oppewal & Hilgenkamp, 2014).

2.4 Resultaten

Hieronder worden per thema de belangrijkste uitkomsten gemeld.

2.4.1 Prevalenties en risicofactoren

Fysieke activiteit & Fitheid

- De score op zelfverzorging (ADL) bleek meer samen te hangen met de mobiliteit dan met de mate van de verstandelijke beperking. De score op vaardigheden om zelfstandig een huishouding te voeren (instrumentele ADL) hangt vooral samen met de ernst van de verstandelijke beperking.
- Fysieke activiteit: slechts 17% voldeed aan de norm van 10.000 stappen per dag; 36% behaalde 7500 stappen per dag of meer. Minimaal 39% heeft een inactieve leefstijl (minder dan 5000 stappen/dag) (Hilgenkamp et al, 2012a).
- De geselecteerde fitheidstesten zijn betrouwbaar en voldoende uitvoerbaar bij het grootste deel van de ouderen met een verstandelijke beperking.
- Fitheid: ouderen met een verstandelijke beperking zijn op hun vijftigste net zo fit als 70 – 80-jarigen in de algemene bevolking (Hilgenkamp et al, 2012b).
- Spiermassaverlies (sarcopenie): verlies van spiermassa, spierkracht en spierfunctie werd vastgesteld bij 14%. Ook in de subgroep van 50-64 jaar was dat al 13%, dit in tegenstelling tot de algemene populatie, waarin sarcopenie pas regelmatig gezien wordt vanaf 65 jaar. Het risico is vanzelfsprekend extra verhoogd bij rolstoelgebruikers (Bastiaanse et al, 2012).

- Botkwaliteit: 44% van de ouderen met een verstandelijke beperking heeft een slechte botkwaliteit en dus een verhoogde kans op botbreuken. Het risico is extra verhoogd bij vrouwen, gebruik van anti-epileptische medicatie, en mensen met een matige en ernstige verstandelijke beperking (Bastiaanse et al, ingezonden voor publikatie).
- Slaapproblemen: 72% van de deelnemers had tenminste één slaapprobleem (laat inslapen, 's nachts wakker worden, korte slaap, vroeg wakker worden). Deelnemers die veel zorg nodig hebben, liggen vaak erg lang in bed (Van de Wouw et al, 2013).
- Het circadiaan rust-activiteitsritme was significant minder stabiel en meer gefragmenteerd dan dat van een controlegroep van 56 ouderen met een normaal verstand (Maaskant et al, 2013).

Voeding & Voedingstoestand

- Voeding: Veel ouderen met een verstandelijke beperking voldoen niet aan de richtlijnen voor gezonde voeding zoals die zijn opgesteld door de Gezondheidsraad: 69% onvoldoende calorieën, 98% onvoldoende vezels, 30% te weinig eiwitten, 90% teveel verzadigd vet (Bastiaanse et al, ingezonden voor publikatie).
- Slikproblemen: 52% heeft matige of ernstige slikproblemen. Slechts bij 11% van de deelnemers met slikproblemen was dit probleem vermeld in het medisch dossier (Bastiaanse et al, ingezonden voor publikatie).
- Vitamine D: 42% heeft een tekort aan vitamine D en 9% procent een ernstig tekort. Hoewel het Voedingscentrum adviseert dat alle vrouwen van 50 jaar en ouder en alle mannen van 70 jaar en ouder in de wintermaanden vitamine D-druppels of tabletten gebruiken, bleek dat slechts 45% van de deelnemers die kreeg (Bastiaanse et al, ingezonden voor publikatie).
- Ondergewicht werd vastgesteld bij 3%. Dit percentage is vergelijkbaar met dat in de algemene Nederlandse oudere bevolking.
- Obesitas: Gemeten met de *body mass index* (BMI) was er meer obesitas (26%) dan in de algemene Nederlandse oudere bevolking (10%). Met de middelomtrek en middel-heupratio had respectievelijk 46% en 48% obesitas (De Winter et al, 2012a).

Cardiovasculair risico en chronische nierziekte

- Risicofactoren voor hart- en vaatziekte: obesitas (bij vrouwen), diabetes en perifeer arterieel vaatlijden (atherosclerose in de benen) komen significant vaker voor dan in de algemene Nederlandse 50+ populatie (RIVM). Hypertensie en metabool syndroom (een combinatie van obesitas, hypertensie, een te hoog bloedsuiker gehalte en een te hoog cholesterol) komen even vaak voor als bij andere mensen (De Winter et al, 2012b; 2013a).

- Een verhoogd cardiovasculair risico werd vooral aangetroffen bij mensen die relatief zelfstandig wonen, zelfstandig boodschappen doen en/of zelfstandig een maaltijd bereiden (De Winter et al, 2012b).
- Nierziekte: chronische nierfunctiestoornissen, die het resultaat kunnen zijn van atherosclerose van de niervaten, komen even vaak voor als in de algemene populatie (De Winter et al, 2013b).
- Vanwege het hoge medicatiegebruik moet de nierfunctie bij alle ouderen en volwassenen met het Down syndroom gemeten worden.
- Als er sprake is van sarcopenie (ernstig spiermassaverlies), moet de nierfunctie niet alleen gebaseerd worden op de standaard formule op basis van kreatinine, maar moet ook cystatine-C bepaald worden.

Depressie & Angst

- Depressie: Een verhoogd aantal depressieve symptomen kwam bij 16,8% van de ouderen voor. Depressieve stoornissen werden gediagnostiseerd bij 7,6%; dit is 5 maal zoveel als bij ouderen in de algemene populatie (Hermans et al, 2013).
- Angst: Een verhoogd aantal angstsymptomen werd vastgesteld bij 16,3%, wat vaker is dan bij ouderen zonder verstandelijke beperking. Angststoornissen werden gediagnostiseerd bij 4,4%, wat minder vaak is dan in de algemene oudere populatie (Hermans et al, 2013).
- *Life events*: 72% was in het voorafgaande jaar blootgesteld aan één of meer *life events* die zij als ernstig negatief hadden ervaren. In de top 5 stonden problemen met een medebewoner (28%), structurele verandering in personeel (27%), lichte lichamelijke ziekte (24%), verlies of vermindering van mobiliteit (16%), en ernstige ziekte van familie, verzorger of vriend (13%). Deelnemers met verhoogde depressie- of angstsymptomen hadden significant meer life events meegemaakt.
- Roken en alcoholgebruik: 20% van de deelnemers rookte, 14% dronk 1 tot 2 glazen en 1,2% dronk 3 of meer glazen alcohol per dag. Rokers en alcoholgebruikers werden vaker aangetroffen onder mannen en hadden vaker een lichte of zeer lichte verstandelijke beperking dan niet-rokers en niet-drinkers.
- Gedragsmedicatie: 30% van de deelnemers gebruikte antipsychotica, 12% antidepressiva en 20% angstremmende en kalmerende middelen. Op oudere leeftijd worden dus door cliënten van de verstandelijk gehandicaptenzorg nog evenveel antipsychotica geslikt als op jongvolwassen leeftijd (30%). Omdat deze middelen bij een meerderheid niet geïndiceerd zijn (gedragsproblemen) en het risico op diabetes en metabool syndroom verhogen, is beperken van dit gebruik urgent.

Kwaliteit van leven

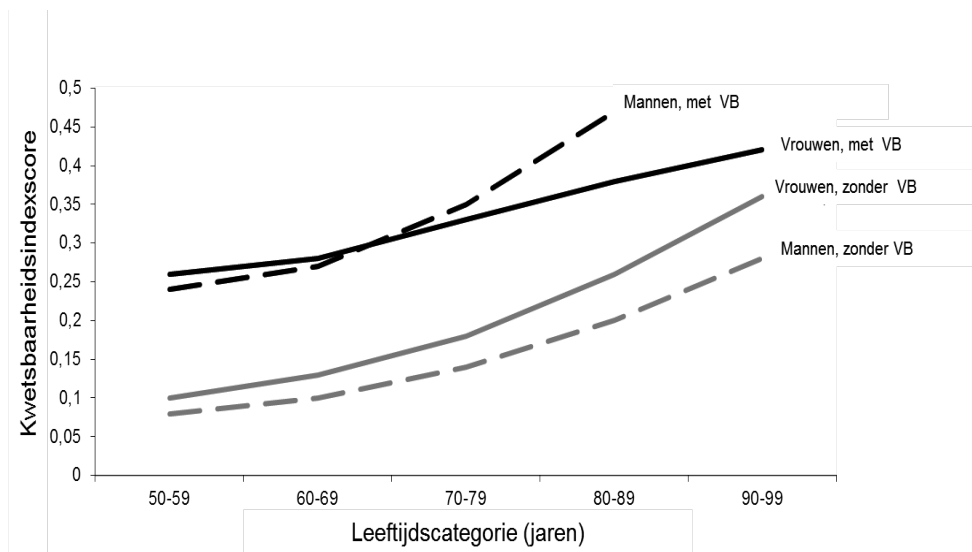
De kwaliteit van leven is onderzocht met de Intellectual Disability Quality of Life-16 vragenlijst (Douma et al., 2001) bij 146 ouderen met zwakbegaafdheid of een lichte of matige verstandelijke beperking die in staat waren om zelf te rapporteren over hun kwaliteit van leven, depressie, angst en sociale contacten.

- Ouderen met lichte of matige verstandelijke beperkingen beoordelen hun kwaliteit van leven over het algemeen als goed.
- Ouderen met depressieve klachten of weinig sociale contacten beoordelen hun kwaliteit van leven significant minder positief.

Overkoepelende gezondheidsmaten

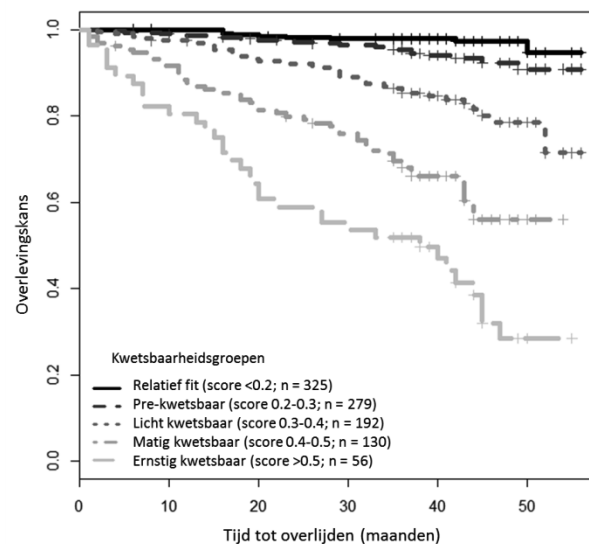
- Multimorbiditeit komt voor bij 80% (≥ 2 chronische aandoeningen) respectievelijk 47% (≥ 4 chronische aandoeningen) van de 50-plussers met een verstandelijke beperking. Dit is vergelijkbaar met de prevalenties in Nederlandse verpleeghuizen (Hermans & Evenhuis, 2014).
- Onze analyses om morbiditeitsclusters te definiëren gaven in de relatief kleine subgroep voor wie complete gegevens beschikbaar waren, nog geen sluitende uitkomsten. Wel waren er aanwijzingen voor een cluster van chronische aandoeningen die geassocieerd zijn met cerebrale parese (epilepsie, slikstoornissen, obstipatie, reflux van maagzuur, slechthoofdpijn), een cluster met psychische aandoeningen (depressie en angst), een cluster met aandoeningen die veel voorkomen bij mensen met het Down syndroom (schildklierstoornissen, slechthoofdpijn, slechthoofdpijn) en een cluster hart- en vaatziekte (perifere atherosclerose, diabetes, hartinfarct, CVA).
- Polyfarmacie (5 of meer chronisch gebruikte medicijnen) werd aangetroffen bij 40% van de deelnemers. Medicatie voor hart- en vaatziekte wordt gebruikt door 42% van de subgroep met lichte verstandelijke beperkingen. Dit weerspiegelt vermoedelijk enerzijds de relatief ongezonde leefstijl van deze zelfstandige groep en anderzijds een relatief hoog gebruik van psychofarmaca, omdat deze mensen vooral wegens geestelijke gezondheidsproblemen een AWBZ-indicatie hebben gekregen. Misschien is er nog een derde hypothetische reden: deze groep kan zelf klachten beter aangeven waardoor de herkenning door artsen beter is.
- Kwetsbaarheid: mensen met een verstandelijke beperking zijn op een veel jongere leeftijd kwetsbaar dan mensen zonder verstandelijke beperking (Figuur 1) (Schoufour et al, 2013).

Figuur 1. Kwetsbaarheid naar leeftijd bij mensen met en zonder verstandelijke beperking (VB)



- Gedurende een follow-up van 3 jaren bleek, dat kwetsbaarheid net als in de algemene bevolking voorspellend is voor achteruitgang in zelfredzaamheid en mobiliteit, toename van het medicatiegebruik, toename van het aantal chronische aandoeningen, toename van de zorgzwaarte, en overlijden (Figuur 2) (Schoufour et al, 2014a,b; 2015a,b)

Figuur 2. Overleving in groepen met een toenemende kwetsbaarheidsscore



2.4.2 Diagnostische instrumenten

Voor deze studie is op basis van de wetenschappelijke literatuur een aantal diagnostische instrumenten geselecteerd, die deels niet eerder in de (Nederlandse) zorg gebruikt werden. Sommige waren ontwikkeld voor andere groepen en moesten worden aangepast voor de doelgroep. Andere moesten

worden vertaald uit het Engels. In die gevallen moesten de toepasbaarheid en betrouwbaarheid eerst opnieuw onderzocht worden. Bij een aantal is ook de validiteit opnieuw onderzocht: meet de methode wel wat hij pretendeert te meten? Medewerkers in het GOUD consortium die de metingen in hun zorgorganisatie hebben uitgevoerd, zijn getraind in het gebruik.

Tabel 1 is een lijst van ‘nieuwe’ instrumenten die goed bevallen zijn en inmiddels ingevoerd in de zorgorganisaties van het GOUD consortium, of geadopteerd door beroepsgroepen.

Tabel 1. ‘Nieuwe’ diagnostische instrumenten die zijn getoetst in de GOUD-studie

	Wat meet het?	Discipline
Fysieke Activiteit & Fitheid		
Pedometer NL-1000 Stepwatch (voor $\leq 3\text{km/u}$)	Fysieke activiteit: aantal stappen per dag	Arts, fysiotherapeut, bewegingsdeskundige
VB-Fitscan	Lichaamssamenstelling, spierkrachtuithoudingsvermogen, spierkracht, statische en dynamische balans	Getrainde fysiotherapeut bewegingsagoog en andere professionals in het veld van lichamelijke activiteit, sport en inspanning
Actiwatch	Slaapkwaliteit Circadiaan rust-activiteitsritme	Opgeleid coördinator
Echometing hielbot (Lunar Achilles)	Botkwaliteit	Arts
Voeding & Voedingstoestand		
Mini Nutritional Assessment (MNA)	Risico op ondervoeding	Diëtist NB In originele vorm niet valide; moet aangepast worden
Dysphagia Disorder Survey	Maaltijdobservatie van het slikken op verschillende niveaus	Getrainde logopedist NB Classificatie van de ernst moet aangepast worden
Hart- en vaatziekte		
Enkel-arm index	Perifere atherosclerose	Arts
Depressie & Angst		
Inventory of Depressive Symptomatology Self Report (IDS-SR)	Screening op depressieve symptomen (zelfrapportage)	Gedragdeskundige

Glasgow Anxiety Scale (GAS-ID)	Screening op angstsymptomen (zelfrapportage)	Gedragsdeskundige
Angst, Depressie & Stemnings-schaal (ADESS)	Screening op angst en depressie (observatie)	Gedragsdeskundige
PAS-ADD diagnostisch interview	Psychiatrische diagnoses In geval van hoge scores op screeningslijsten	Getrainde gedragsdeskundige
Life events checklist	Specifieke life events in de doelgroep	Woonbegeleider Gedragsdeskundige
Zelfstandigheid en kwaliteit van leven		
Barthel Index	Activiteiten van het Dagelijks Leven (ADL) (zelfverzorging)	
Lawton & Brody IADL questionnaire	Instrumentele ADL (huishouding voeren)	

2.5 Dagbestedingsprogramma fysieke activiteit en fitheid

Dit interventieprogramma is door onderzoeker Marieke van Schijndel-Speet zorgvuldig inhoudelijk en organisatorisch voorbereid. Zij is begonnen met individuele en groepsinterviews met oudere cliënten met lichte en matige verstandelijke beperkingen, waarin zij inventariseerde hoe deze mensen aan het bewegen te krijgen zouden zijn (Van Schijndel-Speet et al, 2014). Op basis daarvan en de wetenschappelijke literatuur heeft zij strategieën voor een succesvol programma ontwikkeld voor groepen van 8-12 deelnemers, dat driemaal per week werd aangeboden. De inhoudelijke eisen aan de fitheidsactiviteiten zijn gebaseerd op de richtlijnen voor chronisch zieken en 65-plussers van het American College of Sports Medicine en de American Heart Association, die in overleg met experts uit de betrokken zorgorganisaties zijn aangepast.

Samen met de bewegingsagogen van de zorgorganisaties heeft ze voor de doelgroep een lange lijst van geschikte, speelse oefeningen opgesteld, zodat het programma afwisselend kon blijven en afgestemd kon worden op de verschillende groepen. De eerste tijd waren de oefeningen nog gemakkelijk, zodat iedereen gewend kon raken. Daarna ging de moeilijkheidsgraad geleidelijk omhoog, bijvoorbeeld door opbouw in duur en intensiteit.

De oefeningen werden gegeven door de bewegingsdeskundigen en de eigen activiteitenbegeleiders. Daarnaast is samen met didactische medewerkers een leuk en concreet educatief programma ontwikkeld, dat tweemaal per week door de getrainde activiteitenbegeleiders werd aangeboden (Van Schijndel-Speet et al, 2013).

Uiteindelijk heeft het programma 8 maanden succesvol gedraaid in vijf dagactiviteitencentra (Van Schijndel-Speet et al, 2014). De mate van inspanning werd gemeten met hartslagmeters (Van Schijndel-Speet et al, ingezonden voor publikatie).

De evaluatie van de effecten gebeurde in een *randomized controlled trial* (RCT); de contrôlegroep deed aan het gewone dagactiviteitenprogramma mee. Het bleek dat de groep die aan het fitheidsprogramma had meegedaan, beter was geworden dan de contrôlegroep in spierkracht, cholesterolgehalte in het bloed en bloeddruk, terwijl de contrôlegroep een grotere achteruitgang liet zien in cognitief functioneren dan de participatiegroep. Ook bleek dat ze per dag gemiddeld meer waren gaan lopen dan de contrôlegroep. De verschillen waren nog subtiel, maar significant (Van Schijndel-Speet et al, ingezonden voor publikatie).

Uit deze studie blijkt, dat het mogelijk is een effectief fitheidsprogramma te ontwikkelen en succesvol te implementeren, maar dat het veel tijd en inspanning kost.

3. Kennisverspreiding en implementatie

Er zijn gedurende en na de studie veel presentaties over resultaten aan betreffende vakgroepen van de consortiumorganisaties gegeven, zodat de professionals de opgedane kennis konden inzetten voor verbetering van hun diagnostiek, behandeling en/of ondersteuning.

Voor drie belangrijke thema's (slaap, slikproblemen en polyfarmacie) worden nieuwe meetmethoden structureel ingebed in nieuw vormgegeven diagnostische processen of screeningsprocedures, middels zorgverbeteringsprojecten.

Binnen en buiten het consortium zijn professionals getraind in het analyseren en interpreteren van de Actiwatch gegevens, op basis van de inzichten die uit de studie naar voren zijn gekomen.

De fitheidstesten die uitvoerbaar, valide en betrouwbaar bleken te zijn, zijn gebundeld in de VB-fitscan, met een handleiding en een scoreformulier die in samenwerking met fysiotherapeuten ontwikkeld zijn. Deze eerste versie biedt fysiotherapeuten en bewegingsagogen aanknopingspunten voor het inzetten van fitheidstesten als middel voor diagnostiek en evaluatie. Een landelijke database waarin de gegevens van afgenomen fitheidstesten verzameld kunnen worden, is in de maak. Parallel aan dit proces is het Kennisnetwerk Fitheid en Mensen met een verstandelijke beperking opgericht, waarvan de LinkedIn groep inmiddels 142 leden kent. Via Thessa Hilgenkamp zijn er contacten met Onbeperkt Sportief (voorheen Gehandicaptensport Nederland), het Nederlands Instituut voor Sport en Bewegen (NISB) en Special Olympics.

Dr Thessa Hilgenkamp heeft rond haar onderzoekslijn 'Lichamelijke activiteit & Fitheid' vruchtbare internationale samenwerkingsverbanden gelegd met Dr Ellen Freiburger (Institute for Biomedicine of Aging, Friedrich-Alexander Universität Erlangen-Nürnberg), Dr Craig Melville (Psychological Medicine, Gartnavel Royal Hospital, Glasgow), Prof Antonio Cuesta Vargas (Health Sciences, University of Malaga) en Prof Bo Fernhall (University of Illinois, Chicago), op wiens laboratorium voor inspanningsfysiologie zij als Marie Curie fellow een jaar fundamenteel onderzoek gaat doen. Zij

heeft op basis van die contacten vorig jaar een Europees netwerk opgericht, waarin onderzoekers participeren uit Zweden (Karolinska Instituut), Schotland, Duitsland, Spanje en Nederland, met als doel gezamenlijke subsidie-aanvragen en uitwisseling van masterstudenten en promovendi. Een eerste bijeenkomst afgelopen januari is succesvol verlopen.

Ook worden de opbrengsten van GOUD gebruikt voor onderwijsdoeleinden: naast gastcolleges wordt bijvoorbeeld de samenvatting van de proefschriften over lichamelijke activiteit en fitheid gebruikt in de bundel Ouderwordende Cliënt van de VGN.

Het SIR Institute for Pharmacy Practice and Policy te Leiden heeft de resultaten van de GOUD-studie verwerkt in zijn cursussen voor apothekers die werken met verstandelijk gehandicapten.

Het dagbestedingsprogramma is sectorbreed beschikbaar gesteld en is gratis te downloaden via de website van het Kennisplein Gehandicaptensector: www.kennispleingehandicaptensector.nl/bewegen.

Met subsidie van ZonMw en ondersteuning van het Kennisplein is het programma aangepast op basis van tips, gesignaleerde knelpunten en ideeën van uitvoerders. Zo is bijvoorbeeld fotomateriaal ontwikkeld en toegevoegd aan het educatief programma. Omdat het geven van educatie voor veel activiteitenbegeleiders nieuw is, is hiervoor een training ontwikkeld. We bevelen aan om het beweegprogramma in combinatie met het educatief programma uit te voeren, maar de programma's kunnen ook los van elkaar worden gebruikt. Om het programma te kunnen inbedden in het dagbestedingsaanbod van zorgorganisaties, is het nodig om een bewegingsdeskundige (bewegingsagoog of fysiotherapeut) te faciliteren voor (het coachen van activiteitenbegeleiders bij) het uitvoeren van beweegactiviteiten.

Zorgverbetering

Binnen het GOUD-consortium zijn onder leiding van de verse postdocs geëvalueerde zorgverbeteringsprojecten gestart voor slaapproblemen, slikproblemen (gefinancierd door Fonds VG) en polyfarmacie. Verder is door Thessa Hilgenkamp in Abrona een interventiestudie 'Abrona Aktief' uitgevoerd, gericht op meer bewegen in de eigen woning. Het fitheidsprogramma wordt in de dagactiviteitencentra van het consortium breed geïmplementeerd.

Verder loopt op dit moment een door ZonMw gesubsidieerd onderzoek naar de randvoorwaarden voor systematische reviews bij mensen met verstandelijke beperkingen en polyfarmacie in de eerste lijn (Dr Fleur Boot). Hierin wordt samengewerkt door het academisch PRIMEUR netwerk van huisartsen in ZW Nederland, AVG-poli's in ZW-Nederland, en het academische SIR Institute for Pharmacy Practice and Policy te Leiden.

Publikaties

- Bastiaanse LP, Vlasveld G, Penning C, Evenhuis HM. Feasibility and reliability of the Mini Nutritional Assessment (MNA) in older adults with intellectual disabilities. *J Nutr Health Aging* 2012;16:759-62.
- Bastiaanse LP, Hilgenkamp TI, Echteld MA, Evenhuis HM. Prevalence and associated factors of sarcopenia in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2012;33:2004-12.
- Bastiaanse LP, Mergler S, Evenhuis HM, Echteld MA. Bone quality in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:1927-33.
- Bastiaanse L, Evenhuis H, Odekerken M, Vriend-Asscheman B, van Steenselen W & Echteld M. Inadequate dietary intake in older people with intellectual disabilities: results of the HA-ID study. Ingezonden voor publicatie.
- Bastiaanse L, van der Kamp A, Evenhuis H & Echteld M. Dysphagia in older people with intellectual disabilities: results of the HA-ID study. Ingezonden voor publicatie.
- Bastiaanse L, van Staalduine L, Evenhuis H & Echteld M. Evaluation of the Mini Nutritional Assessment in older people with intellectual disabilities. Ingezonden voor publicatie.
- Bastiaanse L, Mergler S, Wielders J, Echteld M, Thijssen J & Evenhuis H. Observed vitamin D deficiency variations in older adults with intellectual disabilities. Ingezonden voor publicatie.
- Coppus A, Evenhuis H, Verberne GJ, Visser F, Gool WA van, Eikelenboom P & Duijn C van. Dementia and mortality in persons with Down's syndrome. *J Intell Disabil Res* 2006;50:768-77.
- Coppus AM et al. Plasma amino acids and neopterin in healthy persons with Down's syndrome. *J Neural Transm.* 2007;114:1041-5.
- Coppus AMW, Evenhuis HM, Verberne GJ, Visser F, Eikelenboom P, Gool WA van & Duijn C van. The impact of Apolipoprotein E on dementia and mortality in persons with Down syndrome. *Neurobiology of Aging* 2008;29:828-35.
- Coppus AMW, Evenhuis HM, Verberne GJ, Visser FE, Oostra BA, Eikelenboom P, Gool WA van, Janssens CJW & Duijn CM van. Survival in elderly persons with Down syndrome. *J Am Geriatr Soc* 2008;56:2311-6.
- Coppus AMW, Fekkes D, Verhoeven WMA, Evenhuis HM & Duijn CM van. Neopterin and the risk of dementia in persons with Down syndrome. *Neuroscience Letters* 2009;458:60-4.
- Coppus AM et al. Plasma levels of nitric oxide related amino acids in demented subjects with Down syndrome are related to neopterin concentrations. *Amino Acids* 2010;38:923-8.
- Coppus AM et al. Early age at menopause is associated with increased risk of dementia and mortality in women with Down syndrome. *J Alzheimers Dis* 2010;19:545-50.
- Coppus AM, Schuur M, Vergeer J, Janssens AC, Oostra BA, Verbeek MM, van Duijn CM. Plasma β amyloid and the risk of Alzheimer's disease in Down syndrome. *Neurobiol Aging*. 2012;33:1988-94.
- Ibrahim-Verbaas CA, Zorkoltseva IV, Amin N, Schuur M, Coppus AM, Isaacs A, Aulchenko YS, Breteler MM, Ikram MA, Axenovich TI, Verbeek MM, van Swieten JC, Oostra BA, van Duijn CM. Linkage analysis for plasma amyloid beta levels in persons with hypertension implicates A β -40 levels to presenilin 2. *Hum Genet.* 2012;131:1869-76.
- Weksler ME, Szabo P, Relkin NR, Reidenberg MM, Weksler BB, Coppus AM. Alzheimer's disease and Down's syndrome: treating two paths to dementia. *Autoimmun Rev.* 2013;12:670-3.

- Coppus AM. People with intellectual disability: what do we know about adulthood and life expectancy? *Dev Disabil Res Rev.* 2013;18:6-16.
- Naudé PJ, Dekker AD, Coppus AM, Vermeiren Y, Eisel UL, van Duijn CM, Van Dam D, De Deyn PP. Serum NGAL is Associated with Distinct Plasma Amyloid- β Peptides According to the Clinical Diagnosis of Dementia in Down Syndrome. *J Alzheimers Dis.* 2015;45:733-743.
- Dekker AD, Coppus AM, Vermeiren Y, Aerts T, van Duijn CM, Kremer BP, Naudé PJ, Van Dam D, De Deyn PP. Serum MHPG strongly predicts conversion to Alzheimer's disease in behaviorally characterized subjects with Down syndrome. *J Alzheimers Dis.* 2015;43:871-91.
- Dijk E van et al. Exploring the use of actigraphy to investigate sleep problems in older people with intellectual disability. *J Intellect Disabil Res* 2012;56:204-11.
- Evenhuis HM. Gezondheid van ouderen met verstandelijke handicaps. *Ned T Geneesk* 2011;155:A2598.
- Evenhuis et al. Frailty and disability in the older population with intellectual disabilities: results from the Healthy Ageing and Intellectual Disability Study (HA-ID). *J Am Geriatr Soc.* 2012 May;60(5):934-8.
- Evenhuis et al. Kwetsbaarheid in de oudere populatie met verstandelijke handicaps. *Ned Tijdschr Geneesk*, 2012 (gelijktijdige vertaling van voorgaande).
- Evenhuis H, Schoufour J, Echteld M. Frailty and intellectual disability: a different operationalization? *Dev Disabil Res Reviews* 2013;18:17-21.
- Evenhuis HM. Niet eerder oud, maar eerder ongezond. *Ned Tijdschr Geneesk* 2014;158:2060-71.
- Hermans H & Evenhuis HM. Characteristics of instruments screening for depression in adults with intellectual disabilities: systematic review. *Res Develop Disabil* 2010;31:1109-20.
- Hermans H, Pas FH van der & Evenhuis HM. Instruments assessing anxiety in adults with intellectual disabilities: a systematic review. *Res Develop Disabil* 2011;32:861-70.
- Hermans H, Jelluma N, Van der Pas FMH & Evenhuis HM. Feasibility, reliability and validity of the Anxiety, Depression And Mood Scale (ADAMS) in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil.* 2011;32:861-70.
- Hermans H et al. Life events and their associations with mental ill-health in older people with intellectual disabilities. *J Affect Disord.* 2012;138:79-85.
- Hermans H, Wieland J, Jelluma N, Van der Pas FMH & Evenhuis H. Reliability and validity of the Dutch version of the Glasgow Anxiety Scale for people with an intellectual disability (GAS-ID). *J Intellect Disabil Res* 2012 Oct 10 (E-pub).
- Hermans H, Beekman AT, Evenhuis HM. Comparison of anxiety as reported by older people with intellectual disabilities and by older people with normal intelligence. *Am J Geriatr Psychiatry* 2014;22:1391-8.
- Hermans H & Evenhuis HM. Factors associated with depression and anxiety in older adults with intellectual disabilities: results of the healthy ageing and intellectual disabilities study. *Int J Geriatr Psychiatry* 2013;28:691-9.
- Hermans H, Beekman AT, Evenhuis HM. Prevalence of depression and anxiety in older users of formal Dutch intellectual disability services. *J Affect Disord* 2013;144:94-100.

- Hermans H, Beekman AT & Evenhuis HM. Comparison of anxiety as reported by older people with intellectual disabilities and by older people with normal intelligence. *Am J Geriatr Psychiatry* 2014;22:1391-8.
- Hermans H & Evenhuis HM. Multimorbidity in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:776-83.
- Hilgenkamp TIM, Wijck R van & Evenhuis HM. Physical fitness in older people with ID - Concept and measuring instruments: a review. *Res Develop Disabil* 2010;31:1027-38.
- Hilgenkamp TIM, Bastiaanse LP, Hermans H, Penning C, Wijck R van & Evenhuis HM. Study Healthy Ageing and Intellectual Disabilities: recruitment and design. *Res Develop Disabil* 2011;32:1097-1106.
- Hilgenkamp et al. (Instrumental) activities of daily living in older adults with intellectual disability. *Res Dev Disabil*. 2011;32:1977-87.
- Hilgenkamp TI, Reis D, van Wijck R, Evenhuis HM. Physical activity levels in older adults with intellectual disabilities are extremely low. *Res Dev Disabil*. 2012;33:477-483.
- Hilgenkamp T et al. Feasibility and reliability of tests for measuring physical fitness in older adults with intellectual disabilities: a pilot study. *J Intellect Dev Disabil*. 2012;37:158-62.
- Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Low physical fitness levels in older adults with ID: Results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil*. 2012;33:1048-58.
- Hilgenkamp et al. Measuring physical activity with pedometers in older adults with intellectual disabilities: reactivity and number of days. *Intell Dev Dis* 2012;50:343-51.
- Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Feasibility of eight physical fitness tests in 1,050 older adults with intellectual disability: results of the healthy ageing with intellectual disabilities study. *Intellect Dev Disabil* 2013;51:33-47.
- Hilgenkamp T et al. Subgroups associated with lower physical fitness in older adults with ID: results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil* 2014;35:439-47.
- Maaskant M, van de Wouw-van Dijk E et al. Circadian sleep-wake rhythm of older people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil*. 2013;34:1144-51.
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Feasibility and outcomes of the Berg Balance Scale in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil*. 2013;34:2743-52.
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Cardiorespiratory fitness in individuals with intellectual disabilities-A review. *Res Dev Disabil*. 2013;34:3301-1
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. The effect of handedness on grip strength in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil*. 2013;34:1623-9
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Evenhuis HM. Heart rate recovery after the 10-m incremental shuttle walking test in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:696-704.
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Schoufour JD, Evenhuis HM. The predictive value of physical fitness for falls in older adults with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:1317-25.
- Oppewal A, Hilgenkamp TI, van Wijck R, Schoufour JD, Evenhuis HM. Physical fitness is predictive for a decline in daily functioning in older adults with intellectual disabilities: results of the HA-ID study. *Res Dev Disabil* 2014;35:2299-315.

- Almuhtaseb S, Oppewal A, Hilgenkamp TI. Gait characteristics in individuals with intellectual disabilities: a literature review. *Res Dev Disabil*. 2014;35:2858-83.
- Van Schijndel-Speet M, Evenhuis HM, van Empelen P, van Wijck R, Echteld MA. Development and evaluation of a structured programme for promoting physical activity among seniors with intellectual disabilities: a study protocol for a cluster randomized trial. *BMC Public Health*. 2013;13:746.
- Van Schijndel-Speet M et al. Facilitators and barriers to physical activity as perceived by older adults with intellectual disabilities. *Intellect Dev Disabil* 2014;35:175-86.
- Van Schijndel-Speet M, Evenhuis HM, van Wijck R, Echteld MA. Implementation of a group-based physical activity programme for ageing adults with ID: a process evaluation. *J Eval Clin Pract* 2014;20:401-7.
- Van Schijndel-Speet M, van den Dorpel A, Hilgenkamp TIM, Evenhuis HM, van Wijck R & Echteld MA. Heart rate response to a physical activity programme among people with intellectual disabilities and its association with improvement in aerobic performance. Ingezonden voor publikatie.
- Van Schijndel-Speet M, Meijer LM, Evenhuis HM, van Wijck R, Echteld MA. Applicable and valid measurements of physical activity among people with intellectual disabilities and a low walking speed. Ingezonden voor publikatie.
- Van Schijndel-Speet M, Evenhuis HM, van Wijck R, van Montfort CAGM & Echteld MA. Results of a cluster randomised clinical trial show that a physical activity programme for ageing adults with intellectual disabilities is effective. Ingezonden voor publikatie.
- Schoufour JD, Mitnitski A, Rockwood K, Evenhuis HM, Echteld MA. Development of a frailty index for older people with intellectual disabilities: results from the HA-ID study. *Res Dev Disabil*. 2013;34:1541-55.
- Schoufour JD, van Wijngaarden J, Mitnitski A, Rockwood K, Evenhuis HM, Echteld MA. Characteristics of the least frail adults with intellectual disabilities: a positive biology perspective. *Res Dev Disabil* 2014;35:127-36..
- Schoufour JD, Mitnitski A, Rockwood K, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Predicting disabilities in daily functioning in older people with intellectual disabilities using a frailty index. *Res Dev Disabil* 2014;35:2267-77.
- Schoufour JD, Evenhuis HM, Echteld MA. The impact of frailty on care intensity in older people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2014;35:3455-61.
- Schoufour JD, Mitnitski A, Rockwood K, Evenhuis HM & Echteld MA. Predicting 3-year survival in older people with intellectual disabilities using a frailty index. *J Am Geriatr Soc* 2015 Mar 6. Epub ahead of print.
- Schoufour JD, Echteld MA, Bastiaanse LP, Evenhuis HM. The use of a frailty index to predict adverse health outcomes in people with intellectual disabilities. *Res Dev Disabil* 2015;38:39-47.
- Schoufour JD, Echteld MA, Boonstra A, Groothuismink ZMA, Evenhuis HM. Biochemical measures and frailty in people with intellectual disabilities. Ingezonden voor publikatie.
- Schoufour JD, Echteld MA, Evenhuis HM. Comparing two frailty measures in their ability to predict mortality among older people with intellectual disabilities. Ingezonden voor publikatie.

- Schoufour JD, Echteld MA, Evenhuis HM. Kwetsbaarheid bij ouderen met een verstandelijke beperking: operationalisering, risico en opsporing. Nederlands Tijdschrift voor Gerontologie en Geriatrie 2015
- De Winter CF, Bastiaanse LP, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Overweight and obesity in older people with intellectual disability. Res Dev Disabil. 2012;33:398-405.
- De Winter CF, Bastiaanse LP, Hilgenkamp TI, Evenhuis HM, Echteld MA. Cardiovascular risk factors (diabetes, hypertension, hypercholesterolemia and metabolic syndrome) in older people with intellectual disability: results of the HA-ID study. Res Dev Disabil. 2012;33:1722-1731.
- de Winter CF, Hermans H, Evenhuis HM, Echteld MA. Associations of symptoms of anxiety and depression with diabetes and cardiovascular risk factors in older people with intellectual disability. J Intellect Disabil Res. 2015;59:176-85.
- De Winter CF & Evenhuis HM. Cardiovasculaire risico's bij mensen met een verstandelijke beperking. Ned Tijdschr Geneesk 2014;158:2055-9.
- De Winter CF, Echteld MA, Evenhuis HM. Chronic kidney disease in older people with intellectual disability: results of the HA-ID study. Res Dev Disabil 2014;35:726-32.
- de Winter CF, Bastiaanse LP, Kranendonk SE, Hilgenkamp TIM, Evenhuis HM, Echteld MA. Peripheral arterial disease in older people with intellectual disability in The Netherlands using the ankle-brachial index: results of the HA-ID study. Res Dev Disabil 2013;34:1663-8.
- E. van de Wouw, H.M. Evenhuis, M.A. Echteld. Prevalence, associated factors and treatment of sleep problems in adults with intellectual disability: a systematic review. Res Dev Disabil. 2012;33:1310-32.
- van de Wouw E, Evenhuis HM, Echteld MA. Objective assessment of sleep and sleep problems in older adults with intellectual disabilities. Res Dev Disabil. 2013;34:2291-303.
- Van de Wouw-van Dijk et al. Comparison of two types of Actiwatch with polysomnography in older adults with intellectual disability: a pilot study. Res Dev Disabil 2013;38:265-73.
- van de Wouw E, Evenhuis HM, Echteld MA. Comparison of the Actiwatch with polysomnography in older adults with intellectual disability: brief report on daytime data. Ingezonden voor publikatie.
- van de Wouw E, Hermans H, Evenhuis HM, Echteld MA. Subjective and objective assessment of sleep in older adults with intellectual disability. Ingezonden voor publikatie.
- Zaal RJ, Kaaij ADM van der, Evenhuis HM & Bemt PMLA van den. Prescription errors in older individuals with an intellectual disability: prevalence and risk factors in the Healthy Ageing and Intellectual Disability Study. Res Dev Disabil. 2013;34:1656-62.

Leeronderzoeken AVG-opleiding

In het kader van de wetenschappelijke vorming in de AVG-opleiding, worden in groepjes van 2-5 AIOS beknopte leeronderzoeken uitgevoerd.

Na een vierdaagse wetenschaps cursus waarin o.a. onderzoeksmethodologie en ethische toetsing worden behandeld, worden in de loop van het eerste jaar de onderzoeksprotocollen geschreven, waarbij elke maand een onderdeel in de groep wordt gepresenteerd en bediscussieerd. In het tweede jaar worden, na ethische toetsing, 2 maanden besteed aan de dataverzameling, analyse en rapportage. Tot 2012 bedacht elk groepje zijn eigen onderwerp, waarna in 2013 en 2014 uit een beperkt aantal thema's kon worden gekozen, die in het verlengde lagen van bij de beide leerstoelen verricht onderzoek. Gebleken is, dat deze vorm van wetenschappelijk onderwijs effectief is in het kweken van een kritisch –analytische attitude in de dagelijkse beroepsuitoefening (Evenhuis & Penning, 2009). Een aantal leeronderzoeken had voldoende kwaliteit om internationaal gepubliceerd te worden. Sommige AIOS kreeg de smaak van onderzoek te pakken en hebben na het voltooien van de opleiding zelf kleinschalig onderzoek of promotie-onderzoek verricht of zijn van plan dat te doen. Uit onderstaande reeks van gedurende 2001-2014 verrichte leeronderzoeken wordt duidelijk hoeveel verschillende thema's van belang geacht worden voor het vak. Omdat in het eerste jaar nog geen 2 maanden vrijgeroosterd waren voor de dataverzameling, betreffen die onderzoeken allemaal literatuurstudies. Schuingedrukte studies zijn gepubliceerd.

Referentie:

Evenhuis HM & Penning C. Eight years of specialist training of Dutch intellectual disability physicians: results of scientific research education. J Policy Practice Intellect Disabil 2009;6: December.

Leeronderzoeken 2001-2014

1. Van Velden 2001 Onderzoek naar stemmingsstoornissen bij het Prader-Willi syndroom (protocolontwikkeling)
2. Van Dijken-Visser 2001 Behandeling van hypogonadisme bij het Prader-Willi syndroom (enquête ouders)
3. Huisman, v.d. Brink & Das 2001 Quality of research into obesity management in people with Prader-Willi syndrome (literatuurstudie)
4. Van Hasselt-vd Velde & Duffels 2001 Slaapstoornissen bij mensen met het Prader-Willi syndroom (literatuurstudie)
5. Bakhtiari, Boot & Bruin 2002 Prevalentie en determinanten van hypothermie bij (zeer) ernstig verstandelijk gehandicapten (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)

6. Vermoen, Meelen & Bastiaanse 2002 Complicaties van obstipatie bij verstandelijk gehandicapten (dossieronderzoek)
7. Eijlders & v.d. Heuvel 2002 Gebruik van libidoremmende medicatie in SGLVG behandelcentra (enquête onder professionals)
8. Bergman & Gremmen 2003 Premedicatie in Nederlandse instellingen voor mensen met een verstandelijke handicap: evidence-base en toepassing van een richtlijn (prospectief kwalitatief onderzoek)
9. Houben, Jansen-Jacobs & Konz 2003 Problematisch gedrag bij mensen met Down syndroom en dementie (cross-sectioneel onderzoek via groepsleiding)
10. Van Eeghen, Hau, Van Rooijen-Boot & Tinselboer. Prevalentie en klinische verschijnselen van coeliakie bij volwassenen met Down syndroom (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
11. Bakker-van Gijssel, Driessen & Fischer. Obstipatie en de Bristol Stoelgang Schaal bij mensen met een verstandelijke handicap (introductie en evaluatie instrument)
12. *Peppink D, Douma-Kloppenburger DD, Rooij-Askes ESP de, Zoest IM van, Evenhuis HM, Gille JJP & Hagen JM van. Feasibility and outcomes of Multiplex Ligation-Dependent Probe Amplification on buccal smears as a screening method for microdeletions and duplications among 300 adults with an intellectual disability of unknown aetiology. J Intellect Disabil Res 2008;52:59-67.*
13. Tack, Mastebroek & Netten. Comorbiditeit bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen in Suriname (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
14. Pollers, Maysoon & Miedema-Loo. Overgewicht bij volwassen mensen met een lichte of matige verstandelijke handicap wonend in een instelling: het stellen van de diagnose en meetmethoden (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
15. Van Kalmthout & Tiems. Menstruatieregulatie bij verstandelijk gehandicapte vrouwen (dossieronderzoek)
16. Van Dongen, Toepoel & Middelhoven. Body Mass Index – Silhouette Matching test bij mensen met een lichte verstandelijke handicap (LVG) (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
17. *de Winter CF, Magilsen K., Alfen C. van, & Evenhuis H.M. Prevalence of cardiovascular risk factors in older people with intellectual disabilities. Am J Intell Dev Disabilities 2009;6:427-36.*
18. *de Winter CF, Magilsen K., Alfen C. van, Willemsen SP & Evenhuis H.M. Metabolic syndrome in 25% of older people with intellectual disability. Fam Pract. 2011;28:141-4.*
19. *Louw J van der, Vorstenbosch R, Vinck, L, Penning C & Evenhuis HM. Prevalence of hypertension in adults with intellectual disabilities, J Intellect Disabil Res 2009;53:78-84.*

20. Pouls KPM, Alsema LE, van der Laan H, Evenhuis HM, Penning C. *Microrint pulmonary function testing in older adults with an intellectual disability. Respiratory Medicine* 2009;103:1954-9.
21. Jansen J, Rozeboom W, Penning C, Evenhuis HM. *Prevalence and incidence of myocardial infarction and cerebrovascular accident in ageing persons with intellectual disability. J Intellect Disabil Res* 2013;57:681-5. Epub 2012, May 8.
22. Bouma & Van der Plas. Gezondheidsregerelateerde kwaliteit van leven bij kinderen met ernstige meervoudige beperkingen: validering van de VOGEL-36 (Vragenlijst voor Observatie van Gezondheidsregerelateerde Levenskwaliteit) (instrumentontwikkeling)
23. Assema, Van de Broek, Räkars & Versleijen. De bloeddruk bij mensen met het syndroom van Down (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
24. Neuvel, Schakel, Sietsma & Swinkels. De prevalentie van overmatig cerumen bij mensen met een verstandelijke beperking (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
25. Van Veldhoven & Hillen. De validiteit van de SCAN vragenlijst: een screeningsinstrument voor cerebrale visuele stoornissen bij kinderen (onderzoek via ouders)
26. Hoving, Rispens & Snuijf. De mate van lichamelijke activiteit van licht en matig verstandelijk gehandicapten in de wijk (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
27. Nabhanizadeh & Zijdam. De PEG-sonde: een zegen of een vloek? (dossiers)
28. Egging & Van Leeuwen. Dysfagie bij ouderen met een verstandelijke beperking (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek met logopedisten)
29. Beek, De Jeu, Langeslag, Rybak, Schaaf. Rationeel voorschrijven van medicatie aan ouderen met een verstandelijke beperking: toepassingsmogelijkheden van de Beers criteria (dossieronderzoek)
30. Aslan, Cerneus & Huffmeijer. Uitkomsten van jaarlijkse screening op schildklierfunctiestoornissen bij mensen met het syndroom van Down: wat doen AVG met een subklinische hypothyreoïdie? (dossieronderzoek)
31. Doeswijk-v.d. Wolf, Groenendijk-Reijenga, De Groot. Protocol VOETschimmel; vergelijkend onderzoek naar ervaring van locale therapie bij voetschimmel infecties (interventiestudie)
32. Bankras & Suripatty. Calciumintake en lage botkwaliteit bij postmenopauzale vrouwen met een verstandelijke beperking (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
33. Van Gerven, Okouere, De Vries & Vogel. Prevalentie van otitis externa bij volwassenen met een verstandelijke beperking (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
34. Van Vlokhoven, Van Hagen, Asma, Van Erp. Prevalentie van tinea pedis bij mensen met een verstandelijke beperking (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
35. Peters C, Schouwenaars F, Haagsma E, Evenhuis H, Echteld M. *Antibiotic prescribing and CRP testing for pulmonary infections of patients with intellectual disabilities. Br J Gen Pract.* 201;63:e326-30

36. Jelluma, De Vink, Siebes. Lux: een luxe?! (onderzoek in leefruimten)
37. Coenen, Van Hedel, Huls, Traas. Fract-uur: uren tussen het optreden van trauma en het vaststellen van een fractuur (onderzoek via groepsleiding)
38. Dekker A, Safi M, Van der Zon-van Welzenis EI, Echteld MA, Evenhuis HM. *Seksualiteit en anticonceptie bij licht verstandelijk beperkte jongeren. Ned Tijdschr Geneeskd* 2014;158:2025-32.
39. Van der Schaaf. Anemie bij mensen met een verstandelijke beperking: prevalentie en gevolgen voor diagnostiek en behandeling (dossieronderzoek)
40. Adriaans, Verhulst, Hartman, Tanir. Prevalentie van vitamine D deficiëntie en geassocieerde factoren (patiëntgebonden cross-sectioneel onderzoek)
41. Zaal-Schuller IH, Goorhuis AE, Bock-Sinot A, Claassen IH, Echteld MA, Evenhuis HM. *The prevalence of peripheral arterial disease in middle-aged people with intellectual disabilities. Res Dev Disabil* 2014;35:526-31.
42. Bindels, Bressers, Castelein, Michiels. Beslissen over (niet) reanimeren: hoe ervaart de wettelijk vertegenwoordiger het besluitvormingsproces? (kwalitatief interview-onderzoek bij wettelijk vertegenwoordigers)
43. Zaal RJ, Ebbers S, Borms M, Koning B de, Momburg E, Ooms P, Vollaard H, van den Bemt PMLA, Evenhuis HM. *Applicability of a Systematic Tool to Reduce Inappropriate Prescribing (STRIP) in adults with an intellectual disability: a pilot study. Ingezonden voor publikatie.*
44. Coret, Hensbroek & Vermeulen. MNA-ID: een screeningslijst voor risico op ondervoeding bij mensen een verstandelijke beperking, 2012
45. Van Beeck Calkoen, Bergisch, Kroft, Evenhuis. QTc prolongation in persons with intellectual disability and antipsychotic drug use, 2012.
46. Steemers, Smeets, Stichting Pergamijn, Khursand, Vlasveld & Rutgers. De prevalentie van benzodiazepinegebruik bij volwassenen met een verstandelijke beperking. 2012
47. Dijkhuizen, Heutmekers, Immink, Verkade, Echteld & Evenhuis. Dysphagia screening with the Dutch Signal List in adults with intellectual disabilities is not valid when compared to the Dysphagia Disorders Survey. 2012
48. Beumer, Lohbeck & Van Riel. Development and evaluation of a sleep self-report instrument for people with a mild intellectual disability (SSR-ID). 2013
49. Visser, Spijker & Van Soest. Applicability of the pESS (pictorial Epworth Sleepiness Scale and prevalence of daytime sleepiness in adults with intellectual disabilities living in residential care. 2013
50. Ter Horst, Baarsen & Visser. The independent influence of sleep time and sleep efficiency, measured by actigraphy, on daytime functioning of adults with a moderate intellectual disability. 2013

51. Jongbloed, Van Douveren, Bethlehem & Reuling-Kuijk. Prevalence, indications and monitoring of pharmacological treatment for sleeping disorders in adults with intellectual disabilities. 2013
52. Bakker, van den Beukel, Chong. The amount of caffeine consumption by people with an intellectual disability. 2014
53. Bots, van den Bosch, Mulder. Feasibility and reliability of Whistler pulmonary function testing in adults with an intellectual disability. 2014
54. Van Rijn-Lugthart & van Holten. Wat zijn de niet-somatische uitdagingen voor artsen in de ziekenhuiszorg voor mensen met een verstandelijke beperking? - Een focus op communicatie, psychosociale en ethische vraagstukken, wettelijk kader en samenwerking tussen de instelling en het ziekenhuis. 2014
55. Goorts, Huisman, Hendrickx & de Klein. Analyzing and comparing the importance of ten aspects in palliative care for people with intellectual disabilities between different involved parties. 2014