Zelfmetingen bij patiënten met myasthenia gravis

auteurs

**ANGELA
LANGERAK**

verpleegkundig specialist neuromusculaire ziekten, Amsterdam UMC, locatie AMC

**JOLIEN VAN DER
GEUGTEN**

onderzoeker en docent, masteropleiding advanced nursing practice / lectoraat ggz-verpleegkunde, Hogeschool Inholland, Amsterdam

FILIP EFTIMOV

neuroloog, Amsterdam UMC, locatie AMC

De auteurs ontwikkelden een zelfmeting voor mensen met myasthenia gravis in de thuissituatie. Het doel: het zelfmanagement van patiënten vergroten, waardoor zij meer zelfvertrouwen krijgen en beter kunnen inschatten wanneer ze contact met de behandelaar moeten opnemen.

TREFWOORDEN

- Zelfmanagement
- Ziekenhuiszorg

Myasthenia gravis (MG) is een auto-immuunziekte van de neuromusculaire overgang. Hierbij ontstaat wisselende, inspannings-gebonden spierzwakte, die zich op verschillende manieren kan uiten. Symptomen zijn hangende oogleden, dubbelzien, problemen met kauwen, slikken en spreken en zwakte van de arm-, been-, nek-, rug- en ademhalingspijpen. Patiënten kunnen één of meer verschijnselen hebben. Ongeveer 15 procent heeft alleen klachten van de oogspieren (oculaire MG). De ernst van de spierzwakte verschilt per patiënt, maar kan ook bij dezelfde patiënt per moment wisselen. Meestal voelt de patiënt zich in de ochtend het best en neemt de spierzwakte in de loop van de dag toe. Het verloop van de ziekte kan grillig zijn en is moeilijk te voorspellen. Bij een myasthene crisis is sprake van respiratoire insufficiëntie (ademhalingsfalen). Dit kan uitgelokt worden door onder andere een onderliggende infectie of het gebruik van sommige medicijnen. Het is dan noodzakelijk direct in te grijpen door het ondersteunen van de ademhaling en intensiveren van de behandeling. De diagnose MG wordt gesteld op basis van de aanwezigheid van antistoffen in het bloed en/of een afwijkend elektromyografisch onderzoek. De behandeling bestaat uit sympto-

Foto: Hercules Robinson / Alamy / mauritius images

CORRESPONDENTIE
ANGELA LANGERAK
A.G.LANGERAK@
AMSTERDAMUMC.NL

matische en/of immunosuppressieve medicamenteuze therapie. Bij een MG-crisis wordt de behandeling aanvullend met plasmaferese (uitwassen antistoffen) of intraveneuze immunoglobuline (binding antistoffen). Met behandeling is de prognose goed.¹⁻² MG heeft een wereldwijde prevalentie van 40-180 per miljoen en een incidentie van 4-12 per miljoen. MG kan op elke leeftijd optreden.²

Het neuromusculair centrum van Amsterdam UMC – locatie AMC is een tertiair centrum waarnaar patiënten uit verschillende ziekenhuizen worden verwezen voor diagnostiek en behandeling van MG. In Amsterdam UMC zijn er binnen de poliklinische zorg voor patiënten met MG elke twee tot drie maanden vaste controlemomenten die gebaseerd zijn op een gemiddelde patiënt. Patiënten moeten bij toename van klachten contact opnemen met de behandelaar: een verpleegkundig specialist (VS) of neuroloog. In de praktijk blijkt dat sommige patiënten en behandelaren behoefte hebben aan intensiever contact, terwijl de standaardcontroles bij stabiele ziekte door anderen als onnodig worden ervaren. Ook vinden patiënten het moeilijk in te schatten op welk moment zij contact met de behandelaar moeten opnemen; hierdoor zoeken zij mogelijk te laat of juist onnodig vaak contact. Vervolgens is het voor de behandelaar moeilijk om telefonisch een inschatting van de ziekteactiviteit te maken.

Om de poliklinische zorg voor patiënten met MG efficiënter en patiëntgerichter te maken, ontwikkelden we een zelfmeting die patiënten thuis kunnen uitvoeren. Het doel hiervan is het zelfmanagement van patiënten met MG te vergroten, waardoor zij meer zelfvertrouwen krijgen en beter kunnen inschatten wanneer ze contact met de behandelaar moeten opnemen. Voor de lange termijn is het doel dat de behandelaar op afstand de respons op de behandeling of de urgentie van nieuwe klachten beter kan inschatten. Op basis daarvan kan een keuze voor de vervolghandeling gemaakt worden of controle in het ziekenhuis vervroegd worden.

De onderzoeksvragen waren:

- In hoeverre is de zelfmeting volledig en op de juiste wijze uitgevoerd?
- In hoeverre draagt de uitvoering van de zelfmeting bij aan het zelfmanagement van patiënten met MG?
- In hoeverre zijn patiënten tevreden over het gebruik van de zelfmeting?

METHODE

Design

Bij deze pilot-interventiestudie is voor het evalueren van het zelfmanagement (uitkomst) een pretest-posttestontwerp met één groep gebruikt. Hierbij werden de zelfmetingen als de interventie beschouwd. De patiënten hebben een pretest over hun zelfmanagementvaardigheden ingevuld. Vervolgens hebben zij gedurende de onderzoeksperiode drie keer de zelfmeting uitgevoerd, met een interval van twee weken. Er is voor gekozen om drie keer de zelfmeting uit te laten voeren, omdat de verwachting was dat er bij het uitvoeren sprake is van een leercurve. Na het uitvoeren van de zelfmetingen vulden de patiënten de posttest in over hun zelfmanagementvaardigheden. Er is een vergelijking gemaakt tussen hun zelfmanagementvaardigheden voor en na de interventie. De onderzoeksvragen over de wijze van uitvoering (uitkomst) en patiënttevredenheid (uitkomst) werden beantwoord met beschrijvend cross-sectioneel design.³ Na de onderzoeksperiode heeft hiervoor eenmalig een kwantitatieve meting plaatsgevonden. De studie was onderdeel van een afstudeeronderzoek voor de masteropleiding tot VS en kent daardoor een beperkte onderzoeksperiode.

Interventie

De zelfmeting bestaat uit twee onderdelen (zie figuur 1). Deel 1 is een scorelijst over myasthenie symptomen en is gebaseerd op de MG-ADL-schaal. Dit is een Nederlandstalige scorelijst over MG-symptomen die vooral in researchverband wordt gebruikt, maar ook bruikbaar is in de klinische praktijk.⁴ Er worden acht symptomen benoemd die de patiënt moet scoren in ernst. Hieruit komt een totaalscore (0-24), waarbij een

hogere score overeenkomt met een ernstigere ziekteactiviteit. Deel 2 is een fysieke meting waarbij de patiënt, met behulp van een stopwatch, negen metingen uitvoert. Per onderdeel komt er een score uit, met een totaalscore (0-27). Een hogere score komt overeen met een ernstigere ziekteactiviteit. De fysieke meting is gebaseerd op de Quantitative Myasthenia Gravis-test (QMG). In de huidige situatie neemt de VS tijdens polibezoeken de QMG af. Deze bestaat uit uithoudingstesten waarmee de ziekte-activiteit inzichtelijk wordt gemaakt. Acht onderdelen van de QMG kan de patiënt zelfstandig uitvoeren; deze zijn daarom opgenomen in de zelfmeting. Op basis van ervaring hebben we een onderdeel gericht op de ademhaling toegevoegd. Als er problemen zijn met de ademhaling, kan dit duiden op een (dreigende) MG-crisis en moet direct actie worden ondernomen.¹

Vooraf kregen patiënten mondelinge voorlichting van de VS en een instructiebrief met foto's over de uitvoering van de metingen. Tijdens de onderzoeksperiode konden zij bij vragen of problemen contact opnemen met de VS. Er is niet onderzocht of patiënten dit voldoende vonden.

Onderzoekspopulatie en steekproef

De onderzoekspopulatie bestaat uit patiënten met MG die onder behandeling zijn in Amsterdam UMC. De inclusiecriteria waren: bewezen MG (aanwezigheid van antistoffen en/of ondersteuning uit EMG-onderzoek), een leeftijd van 18 jaar of ouder en voldoende beheersing van de Nederlandse taal. De exclusiecriteria: oculaire MG en onvoldoende mogelijkheid om thuis zelfmetingen uit te voeren (bijvoorbeeld niet in het bezit zijn van een stopwatch of het ontbreken van ondersteuning door een naaste als ondersteuning gewenst is).

Bij een pilotonderzoek is het gebruikelijk tien tot 12 patiënten te includeren.^{3,5} Vanwege het risico op uitval is gekozen voor een gemakssteekproef met minimaal 15 patiënten. Alle benaderde patiënten gingen akkoord met deelname.

FIGUUR 1 ZELFMETING

Deel 1: scorelijst myasthene symptomen

Naam:		Datum:			
Items	Graad 0	Graad 1	Graad 2	Graad 3	Score (0,1,2,3)
1. Spreken	Normaal	Van tijd tot tijd ongeararticuleerde of nasale spraak	Constant ongeararticuleerd of nasaal, maar het is te verstaan	Spraak is moeilijk te verstaan	
2. Kauwen	Normaal	Vermoeidheid bij vast voedsel	Vermoeidheid bij zacht voedsel	Maagsonde	
3. Slikken	Normaal	Zelden verslikken	Frequent verslikken, dat dieetwijziging noodzakelijk maakt	Maagsonde	
4. Ademen	Normaal	Kortademig bij inspanning	Kortademig in rust	Afhankelijk van beademing	
5. Vermogen aangetast om tanden te poetsen of haar te kammen	Geen	Extra inspanning, maar ik heb geen rustpauzes nodig	Rustpauzes nodig	Ik kan een van deze functies niet uitvoeren	
6. Vermogen aangetast om uit stoel op te staan	Geen	Mild, ik gebruik soms de armen	Matig, ik gebruik altijd de armen	Hevig, ik heb hulp nodig	
7. Dubbelzien	Geen	Komt voor, maar niet dagelijks	Dagelijks, maar niet constant	Constant	
8. Hangend ooglid	Geen	Komt voor, maar niet dagelijks	Dagelijks, maar niet constant	Constant	
Totale MG-ADL-SCORE (item 1-8):					124

Deel 2: fysieke meting

Naam:		Tijdstip laatste meting:			
Datum:		Tijdstip uitvoering:			
Test Cijfer	Geen 0	Mild 1	Matig 2	Zwaar 3	Score (0,1,2,3) + seconden
1. Dubbelzien bij naar rechts kijken, seconden	60	11-59	1-10	Spontaan	
2. Halve beker water drinken	Normaal	Licht kuchen of keel schrapen	Zwaar kuchen, verslikken, water dat uit de neus loopt	Ik kan niet slikken	
3. Spraak bij tellen tot 50 (begin van verandering spraak)	Geen bij 50	Dysartrie bij 30-49	Dysartrie bij 10-29	Dysartrie bij 1-9	
4. Rechter arm gestrekt (90°, zittend), seconden	240	90-239	10-89	0-9	
5. Linker arm gestrekt (90°, zittend), seconden	240	90-239	10-89	0-9	
6. Plat liggen, seconden	60	30-59	1-29	0	
7. Hoofd optillen (45°, in rugligging), seconden	120	30-119	1-29	0	
8. Rechter been gestrekt (45°, in rugligging), seconden	100	31-99	1-30	0	
9. Linker been gestrekt (45°, in rugligging), seconden	100	31-99	1-30	0	
Totale score (item 1-9):					127

Dataverzameling

Voor de eerste onderzoeksvraag (wijze van uitvoering) hield de VS in het patiëntendossier bij hoeveel patiënten de zelfmetingen volledig en juist hadden uitgevoerd. Zo is op een gestructureerde wijze inzichtelijk gemaakt hoe de uitvoering is verlopen.

Van patiënten die het volledige onderzoek hebben doorlopen zijn demografische en klinische kenmerken verzameld (zie tabel 1). Om te beoordelen of de ziekte gedurende de onderzoeksperiode stabiel was, is aan het eind aan patiënten gevraagd te beoordelen of de ziekteactiviteit op dat moment gelijk was aan het moment waarop zij begonnen met zelfmetingen.

Voor het meten van het zelfmanagement is het Patiënt Activatie Meetinstrument (PAM-13NL) gebruikt. Dit is

een gevalideerd meetinstrument. Het maakt inzichtelijk of patiënten met een chronische ziekte over de juiste kennis en vaardigheden beschikken voor zelfmanagement en of ze vertrouwen hebben om deze toe te passen in de omgang met de ziekte.⁶ De PAM-13NL bestaat uit 13 stellingen, waarbij de patiënt op een vijf punt-Likertschaal aangeeft in hoeverre hij het eens is met de stelling. Via de somscore kan de patiënt ingedeeld worden in vier niveaus van activatie: van de passieve (level 1) tot actieve patiënt (level 4).⁷ Voor het berekenen van de somscore van de PAM-13NL is een formule gebruikt waarmee een Nederlandse huisartsencoöperatie werkt. De formule leidt tot een somscore (13-52) op basis waarvan de patiënt ingedeeld wordt in één van de vier niveaus.⁸ Het algoritme van de ontwikkelaar van

de PAM-13, Insignia Health, was niet beschikbaar voor dit onderzoek. De patiënttevredenheid is uitgewerkt in een vijf punt-Likertschaal bestaande uit negen stellingen. Om de betrouwbaarheid van de vragenlijst te vergroten is deze door drie personen beoordeeld. De stellingen zijn zowel positief als negatief geformuleerd; daardoor moet de patiënt de stellingen zorgvuldig lezen.³ Per item wordt een score (1-5) verkregen. Hoe hoger de somscore, hoe groter de patiënttevredenheid.

Data-analyse

De data over de wijze van uitvoering zijn beschrijvend weergegeven. De resultaten van voor en na interventie met de PAM-13NL (zelfmanagement) zijn uitgesplitst in een PAM-score en PAM-niveau. Voor de PAM-score is een

TABEL 1 DEMOGRAFISCHE EN KLINISCHE KENMERKEN (N=16)

Leeftijd in jaren; gemiddelde (range; SD)	58 (24-82; 17)
Geslacht; n (%)	
• Man	6 (37,5)
• Vrouw	10 (62,5)
Antistoffen; n (%)	
• AChR+ ^a	13 (81,3)
• Seronegatief ^b	3 (18,8)
Stabiele ziekte; n (%) ^c	
• Mee oneens	3 (18,8)
• Niet mee oneens en niet mee eens	1 (6,3)
• Mee eens	3 (18,8)
• Zeer mee eens	9 (56,3)

^aAntistoffen tegen acetylcholinereceptoren

^bGeen antistoffen aantoonbaar

^cDe niet gekozen antwoordmogelijkheden zijn niet weergegeven

mediaan met een eerste en derde kwartiel (Q1 en Q3) berekend. Vervolgens zijn de uitkomsten van de pre- en posttest getoetst met de Wilcoxon-toets. De alpha is 0.05.

Voor de uitkomst 'patiënttevredenheid' is over de somscore de mediaan met een eerste en derde kwartiel (Q1 en Q3) berekend. De uitkomsten van de vragen zijn ook beschrijvend weergegeven.

RESULTATEN

De zelfmetingen zijn door 16 (84 procent) van de 19 geïncludeerde patiënten volledig en juist uitgevoerd. Drie patiënten zijn uitgevallen vanwege een ziekteperiode anders dan MG. De kenmerken van de 16 patiënten staan in tabel 1.

Zelfmanagement

De PAM-13NL geeft met een PAM-score en bijpassend PAM-niveau inzicht in de mate van zelfmanagement (zie tabel 2). Voor de PAM-score is het verschil tussen de pretest (mediaan=42) en de posttest (mediaan=43,5) niet significant. Bij de posttest is het aantal patiënten met het hoogste PAM-niveau met twee gestegen en er is geen patiënt meer in het laagste PAM-niveau. Het PAM-niveau verschilt niet significant tussen de pre- en posttest.

Patiënttevredenheid

De mediaan van de somscore (5-45) over patiënttevredenheid is 36. Alle patiënten vinden de zelfmeting

TABEL 2 RESULTATEN PRE- EN POSTTEST MIDDELS PAM-13NL (N=16)

Uitkomst	Pretest	Posttest	P-waarde ^a
PAM-score (13-52); mediaan (Q1; Q3)	42 (39; 46)	43,5 (39,5; 48,8)	0.176
PAM-niveau; n (%)			0.366
• PAM 1	1 (6,3)	0 (0)	
• PAM 2	2 (12,5)	2 (12,5)	
• PAM 3	8 (50)	7 (43,8)	
• PAM 4	5 (31,3)	7 (43,8)	

^aWilcoxon toets

gebruiksvriendelijk. Ook geven zij aan dat de zelfmeting geen belasting is. Acht patiënten (50 procent) vinden dat hun kennis over MG is toegenomen door de zelfmeting en dat zij beter weten wanneer zij contact moeten opnemen met de behandelaar. Van de patiënten vinden er 12 (75 procent) dat het toepassen van de zelfmeting de zorgverlening verbetert. Verder voelen 14 (87,5 procent) zich er veilig bij om de frequentie van de ziekenhuisbezoeken te laten afhangen van de uitkomst van de zelfmeting. Alle patiënten zijn gemotiveerd om de zelfmeting te blijven gebruiken.

DISCUSSIE

We hebben een zelfmeting ontwikkeld en geïmplementeerd om de poliklinische zorg voor patiënten met MG efficiënter en patiëntgerichter te maken. Patiënten zijn tevreden over het gebruik, ze beoordeelden de zelfmeting over het geheel als neutraal tot positief. Er is geen significant verschil gevonden ten aanzien van het zelfmanagement van patiënten. Deze pilotstudie levert belangrijke informatie over de toepasbaarheid van een zelfmeting voor patiënten met MG.

Eerdere studies naar zorg op afstand bij patiënten met MG werden niet gevonden. Patiënten met amyotrofische laterale sclerose, een andere neuromusculaire aandoening, zijn tevreden over een app waarin ze bijhouden hoe het met ze gaat.⁹ Deze tevredenheid komt overeen met de resultaten van dit onderzoek. Een vergelijking met andere onderzoeken met de PAM-13-vragenlijst was niet mogelijk vanwege het ontbreken van het algoritme.

Waarom is er geen significant verschil gevonden voor zelfmanagement? Dit

kan verklaard worden door de beperkte onderzoekspopulatie en de relatief korte onderzoeksperiode, ongeveer tien weken, met een wisselend interval tussen de interventie en de afname van de uitkomst. Het is onwaarschijnlijk dat in korte tijd gedragsverandering plaatsvindt. Verder scoorden bij baseline 13 patiënten al een hoge mate van zelfmanagement. Het was de verwachting dat voor hen een verbetering binnen de beperkte tijd moeilijk zou zijn. Bovendien heeft de variabiliteit in ziekteactiviteit mogelijk de PAM-score van enkele patiënten beïnvloed. Drie patiënten gaven aan dat de ziekte gedurende de onderzoeksperiode niet stabiel was en één patiënt was neutraal ten aanzien van deze stelling. Drie van deze vier patiënten lieten bij de posttest een daling van de PAM-score zien en bij de vierde patiënt bleef de PAM-score gelijk. Bij de zelfmeting zijn geen afkapwaarden afgesproken voor wanneer patiënten contact moeten opnemen met de behandelaar. Bij het beoordelen van de zelfmetingen gaat het namelijk om trendbewaking. Mogelijk hebben het ontbreken van afkapwaarden en afspraken over contact opnemen geleid tot onduidelijkheid bij patiënten. En mogelijk had dit invloed op de mate van zelfmanagement en patiënttevredenheid. Patiënten met een lage posttest-PAM-score scoorden zowel laag als hoog op patiënttevredenheid. Ook patiënten met een hoge posttest-PAM-score scoorden wisselend op de uitkomst patiënttevredenheid. De PAM-score lijkt daardoor niet van invloed te zijn op de patiënttevredenheid. Het niet actief begeleiden van patiënten toen ze de zelfmeting moesten uitvoeren en het feit dat de uitkomsten

niet direct met de behandelaar konden worden gedeeld, kunnen de motivatie van de patiënt en daarmee de patiënttevredenheid negatief beïnvloed hebben. Een sterk punt van dit onderzoek is dat voldoende patiënten deelnamen voor een pilotstudie en dat alle benaderde patiënten akkoord gingen met deelname. De patiënten die zijn uitgevallen kregen gedurende de onderzoeksperiode een bijkomend gezondheidsprobleem. Ondanks uitleg van de VS dat juist op zulke momenten de zelfmetingen behulpzaam kunnen zijn, zagen zij af van deelname. Dit kan gezorgd hebben voor selectiebias, omdat deze patiënten tijdens een bijkomende ziekteperiode mogelijk ook een instabiele MG kregen en/of zij het uitvoeren van de zelfmetingen te belastend vonden. De validiteit van dit onderzoek is beperkt vanwege een relatief kleine onderzoekspopulatie en korte onderzoeksperiode. De uitkomsten zijn wel praktisch relevant voor de poliklinische zorg voor patiënten met MG in het

Amsterdam UMC. Er is geen significant verschil aangetoond in zelfmanagement, maar patiënten blijken tevreden te zijn en ervaren de zelfmetingen niet als een belasting. Het uitvoeren van zelfmetingen lijkt ook geen nadelig effect op patiënten te hebben. De conclusie: de zelfmeting is een waardevolle aanvulling op de huidige poliklinische zorg in het Amsterdam UMC. De frequentie van het uitvoeren van de zelfmeting verschilt per patiënt. Bij stabiele ziekte is de frequentie lager dan wanneer de ziekte actief is en er regelmatig aanpassingen in de behandeling worden gedaan. Op deze manier wordt zorg op maat geboden. Tijdens de COVID-19-crisis is de zelfmeting een praktische aanvulling op videoconsulten. Om meer inzicht te krijgen in het effect van zelfmetingen op het zelfmanagement, is onderzoek nodig met een grotere populatie en over een langere periode. Daarnaast wordt onderzoek geadviseerd naar het op afstand inschatten van de ziekteactiviteit door behan-

delaren, waarbij het waarborgen van de veiligheid bij deze kwetsbare groep een absolute vereiste blijft. ●

REFERENTIES

- Kuks JB.** Neuromusculaire overgangstoornissen. *Nervus*. 2018;2:30-38.
- Gilhus NE & Verschuuren JJ.** Myasthenia gravis: subgroup classification and therapeutic strategies. *The Lancet Neurology*. 2015;14:1023-1036.
- Nieswiadomy RM, Ter Maten A & Hoogerduijn J.** Verpleegkundige onderzoeksmethoden. Derde druk. Amsterdam: Pearson Benelux. 2013.
- Muppidi S.** The Myasthenia Gravis - Specific Activities of Daily Living Profile. *Myasthenia Gravis and Related Disorders I*. 2012;1274:114-119.
- Julious SA.** Sample size of 12 per group rule of thumb for a pilot study. *Pharmaceutical Statistics*. 2005;4: 287-291.
- Hendriks M, Plass AM, Heijmans M, e.a.** Minder zelfmanagementvaardigheden, dus meer zorggebruik? Nivel. www.nivel.nl.
- Zelfzorg Ondersteund Instrumentenkiezer. PAM (Patiënt Activation Measure).** www.zelfzorgondersteund.nl.
- Dokterscoop.** Patiënt Activatie Meetinstrument, introductie voor de zorgverlener. www.dokterscoop.nl.
- ALS Centrum Nederland.** ALS-patiënten tevreden over zorg op maat door eHealth. www.als-centrum.nl.