

Langetermijnbeloop van fysiek functioneren, ervaren gezondheid en arbeidsparticipatie van volwassenen met cerebrale parese

J.L. Benner, S.R. Hilberink, T. Veenis, H.J. Stam, W.M.A. van der Slot, M.E. Roebroek

Met een prevalentie van ongeveer 2 op de 1.000 levendgeborenen,¹ is cerebrale parese (CP) binnen de kinderrevalidatie de meest geziene diagnosegroep, terwijl circa 75% van de mensen met CP ouder is dan 18 jaar. Van deze volwassenen is naar schatting 60% 40 jaar of ouder.² Volwassenen met CP ervaren vaak een achteruitgang in lichamelijk functioneren en kunnen last krijgen van diverse secundaire klachten, waarbij pijn en vermoeidheid het meest voorkomen.^{3,4} Achteruitgang in mobiliteit (met name lopen) en zelfverzorging kan al op jongvolwassen leeftijd ontstaan.^{5,6} Evidence-based interventies om volwassenen met CP voor deze langetermijngevolgen te behandelen zijn nog niet voorhanden.

Lichamelijke achteruitgang en toename van gezondheidsklachten lijken ook gerelateerd te zijn aan een lagere arbeidsparticipatie.⁷ Volwassenen met CP hebben minder vaak werk vergeleken met gezonde leeftijdsgenoten,⁷ al is nog weinig bekend over de ontwikkeling van de arbeidsstatus met het ouder worden.

Tot nu toe is weinig langdurig longitudinaal onderzoek gedaan bij volwassenen met CP. In de huidige longitudinale studie geven we antwoord op de vraag: wat zijn de langetermijngevolgen van leven met CP op het fysiek functioneren, ervaren gezondheid en arbeidsparticipatie?

PARTICIPANTEN EN METHODEN

Sinds 1996 wordt in Den Haag een cohort van volwassenen met CP gevolgd die op jongere leeftijd in behandeling waren bij de kinderrevalidatie van Sophia Revalidatie. Zij zijn op drie momenten gemeten: baseline meting (1996; leeftijd 21-31 jaar),⁸ 4-jaar follow-up (2000)⁹ en 14-jaar follow-up (2010).¹⁰ Naast persoons- en CP-gerelateerde kenmerken, verzamelden we diverse zelfgerapporteerde uitkomsten (*Patient-Reported Outcome Measures*, PROMs) via schriftelijke vragenlijsten (baseline, 14-jaar follow-up) of semigestructureerde interviews (4-jaar follow-up) (tabel 1). Volwassenen met ernstige lichamelijke of intellectuele beperking maakten gebruik van proxy-rapportage (n = 9).

Type (spastisch of niet-spastisch) en lateraliteit (unilateraal of bilateraal) van CP werden in 1996 uit de medische status verzameld. Het grof motorisch functioneren werd in 2000 geclassificeerd volgens de vijf niveaus van het Grof Motorisch Functionerings-Classificatie Systeem (GMFCS), van I (minst aangedaan) tot V (meest aangedaan).¹¹ Voor volwassenen die niet gemeten zijn in 2000 werd het GMFCS-niveau post hoc bepaald op basis van baseline gegevens over loopfunctie, traplopen en hulpmiddelengebruik (gedichotomiseerd als GMFCS-niveaus I-III en IV-V). Met de volgende ja/nee vragen werd de ervaren gezondheid uitgevraagd: 1) 'Voelt u zich meestal gezond?', 2) 'Maakt u zich weleens zorgen om uw gezondheid?' en 3) 'Beperken problemen met uw gezondheid u bij uw activiteiten?'. Aanwezigheid (ja/nee), intensiteit (range 0-100), en impact van pijn (range 0-27) werden gemeten met de *McGill Pain Questionnaire* (MPQ).¹² Ernst van vermoeidheid (range 1-7, waarbij score $\geq 5,1$ 'ernstige vermoeidheid') werd gemeten met de *Fatigue Severity Scale* (FSS).¹³ Daarnaast werd de aanwezigheid van nog tien veelvoorkomende gezondheidsklachten bij volwassenen met CP uitgevraagd (ja/nee). Om mobiliteit te

J.L. (Joyce) Benner, MSc, promovendus, afdeling Revalidatiegeneeskunde Erasmus MC, Rotterdam

Dr. S.R. (Sander) Hilberink, senior onderzoeker, afdeling Revalidatiegeneeskunde Erasmus MC, Rotterdam

Drs. T. (Thessa) Veenis, revalidatiearts, Sophia Revalidatie, Den Haag

Prof. Dr. H.J. (Henk) Stam, hoogleraar revalidatiegeneeskunde/afdelingshoofd, afdeling Revalidatiegeneeskunde Erasmus MC, Rotterdam

Dr. W.M.A. (Wilma) van der Slot, revalidatiearts/senior onderzoeker, Rijndam Revalidatie en afdeling Revalidatiegeneeskunde Erasmus MC, Rotterdam

Dr. M.E. (Marij) Roebroek, universitair hoofddocent Transition & Lifespan Research, afdeling Revalidatiegeneeskunde, Rotterdam

> Tabel 1. Overzicht van kenmerken en PROMs verzameld in 1996, 2000 en 2010.

Kenmerken	1996 (n = 80)	2000 (n = 54)	2010 (n = 49)
Algemene persoonskenmerken ¹	x	x	x
Type en lateraliteit van CP	x	x	x
Niveau van grof motorische functie (GMFCS)		x	
Intellectueel niveau ²	x	x	x
PROMs	1996 (n = 80)	2000 (n = 54)	2010 (n = 49)
Ervaren gezondheid		x	x
Pijn (MPQ)		x	x
Vermoeidheid (FSS)			x
Overige gezondheidsklachten		x	x
Mobiliteit	X		x
ADL-zelfstandigheid (Barthel Index)	X		x
Arbeidsparticipatie	X	x	x

¹ Geslacht, leeftijd, opleidingsniveau (laag (geen/basisonderwijs/vbo/mavo), midden (mbo/havo/vwo), hoog (hbo/universiteit)).

² Intellectueel niveau werd afgeleid van opleidingsniveau: volwassenen die ofwel geen basisonderwijs hadden gevolgd, ofwel in dagbesteding verbleven, ofwel speciaal onderwijs voor kinderen met ernstige leerproblemen hadden gevolgd, werden geclassificeerd als met verstandelijke beperking; alle anderen als met gemiddelde intelligentie of hoger. PROMs, Patient-Reported Outcome Measures; CP, cerebrale parese; GMFCS, Grof Motorisch Functionerings-Classificatie Systeem; MPQ, McGill Pain Questionnaire; FSS, Fatigue Severity Scale.

meten werd voor de volgende afstanden gevraagd of iemand liep - eventueel met hulpmiddelen: binnenshuis (< 10m), rondom het huis (10-100m) en buitenshuis (> 100m). Zelfstandigheid in ADL werd gemeten met de Barthel Index (range 0-20) waarbij een hogere score meer zelfstandigheid betekent.¹⁴ Arbeidsparticipatie werd bepaald met de arbeidsstatus (werkzaam ja/nee) en het gemiddeld aantal uur werk per week. Werkzaam zijn (zowel competitief als beschermd werk) was gedefinieerd als een betaalde baan voor ≥ 12 uur/week.¹⁵

Voor elke uitkomst werd het beloop over drie meetmomenten (14 jaar) of twee meetmomenten (10 jaar) middels longitudinale methoden (*Generalized Estimating Equations* (GEE) en *proportions of change*) geanalyseerd. Deze analyse houdt rekening met de afhankelijkheid tussen herhaalde metingen, tevens kunnen participanten met ontbrekende meetwaarden worden meegenomen in de analyse. Naast het beloop over de tijd werden longitudinale en transversale associaties onderzocht tussen uitkomsten en persoons-

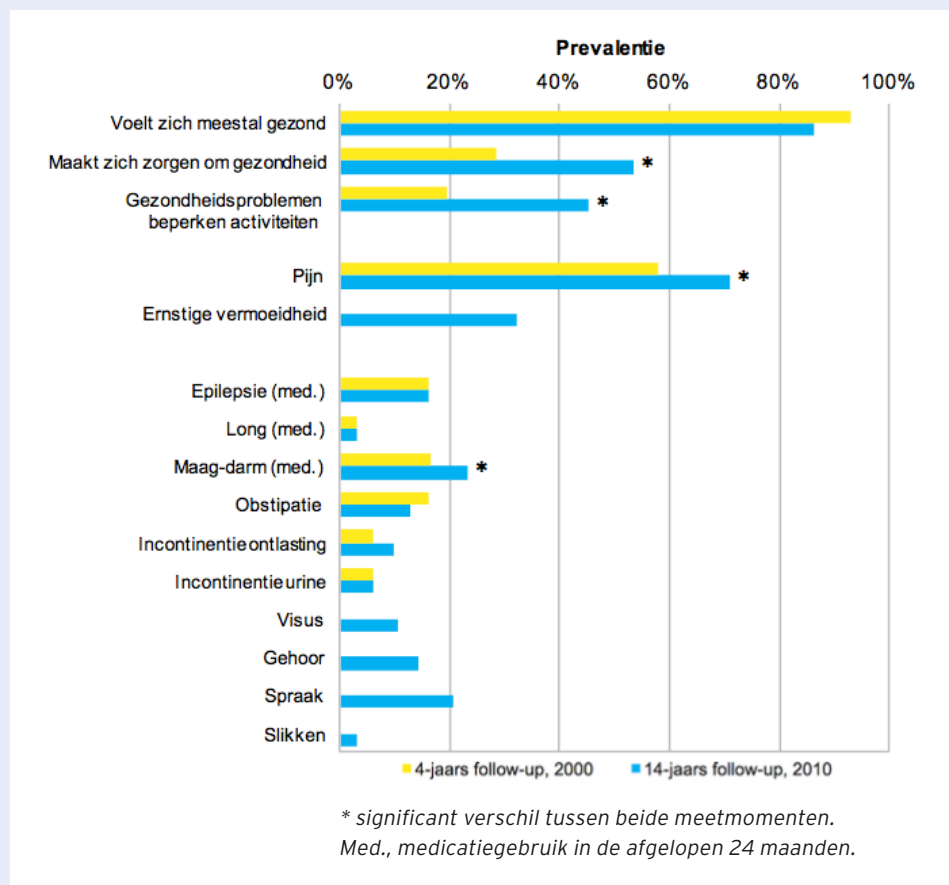
> Tabel 2. Persoons- en CP-gerelateerde kenmerken van het cohort.

Kenmerken	2010 (n = 49)
Leeftijd, gemiddeld (SD)	39,8 (3,0)
Leeftijd, range	35-45
Geslacht, n (%)	
Man	27 (55)
Vrouw	22 (45)
Opleidingsniveau, n (%)	
Laag	31 (63)
Midden	11 (22)
Hoog	7 (14)
Intellectueel niveau, n (%)	
Gemiddelde intelligentie of hoger	38 (78)
Verstandelijke beperking	11 (22)
Type CP¹, n (%)	
Spastisch	36 (75)
Niet-spastisch	12 (25)
Lateraliteit van CP¹, n (%)	
Unilateraal	20 (42)
Bilateraal	28 (58)
GMFCS, n (%)	
Niveau I-III	39 (80)
Niveau IV-V	10 (20)

¹ Ontbrekende data voor type CP (n = 1) en lateraliteit van CP (n = 1). CP, cerebrale parese; GMFCS, Grof Motorisch Functionerings-Classificatie Systeem.

en CP-gerelateerde kenmerken. Tot slot vergeleken we de arbeidsparticipatie van volwassenen met CP met cijfers van de algemene Nederlandse bevolking (corresponderend jaartal en leeftijdsrange).

> **Figuur 1. Ervaren gezondheid en prevalentie van gezondheidsklachten verzameld in 2000 en 2010 (n = 31).**



RESULTATEN

Het cohort bestond uit 88 volwassenen met CP. Hiervan waren 80 geïnccludeerd op baseline en 8 in de 4-jaar follow-up. In de 4-jaar follow-up participeerden 54 volwassenen, en in de 14-jaar follow-up 49 (tabel 1). De non-respons op follow-up was niet selectief op basis van leeftijd, geslacht en CP-gerelateerde kenmerken. De persoons- en CP-gerelateerde kenmerken van de laatste follow-up staan beschreven in tabel 2. Voor 31 participanten waren op twee meetmomenten gegevens beschikbaar voor ervaren gezondheid en gezondheidsklachten (2000 en 2010), voor mobiliteit en ADL-zelfstandigheid waren dat er 48 (1996 en 2010). 65 participanten hadden op ten minste twee van de drie meetmomenten gegevens voor arbeidsparticipatie.

Ervaren gezondheid en gezondheidsklachten

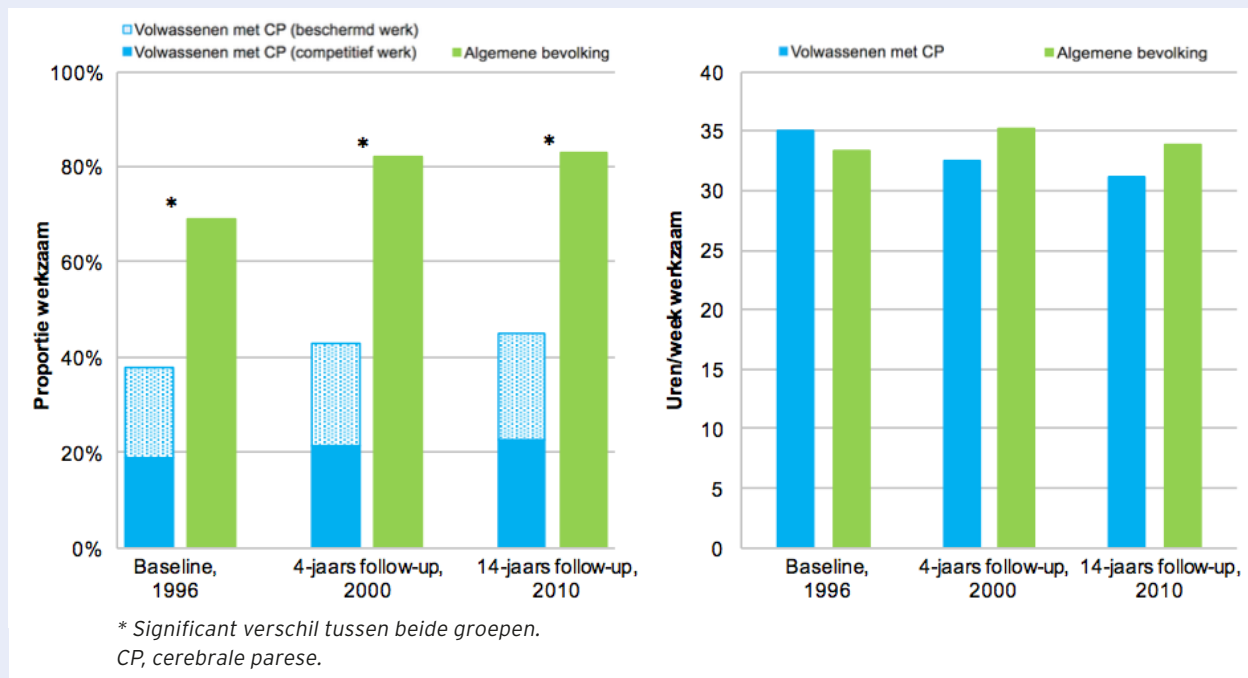
Over tien jaar tijd nam het percentage volwassenen met CP toe dat zich zorgen maakte om zijn/haar gezondheid en dat door gezondheidsproblemen beperkingen in activiteiten ervoeren (figuur 1). Wel gaf de meerderheid op beide meetmomenten aan zich meestal gezond te voelen. Het hebben van pijn, ernstige vermoeidheid, mindere mobiliteit en een hogere mate van ADL-afhankelijkheid hingen samen met een

slechtere ervaren gezondheid. Over tien jaar tijd nam de prevalentie van pijn toe (58 naar 72%), evenals de minimale intensiteit van pijn ($4,2 \pm 9,5$ naar $15,1 \pm 17,0$). De maximale intensiteit (14-jaar follow-up: $75,9 \pm 19,3$) en de impact van pijn (14-jaar follow-up: $5,3 \pm 5,6$) bleven onveranderd. Op beide meetmomenten hadden deelnemers in GMFCS-niveaus I-III vaker pijn dan deelnemers in niveaus IV-V (78-87% versus 0-25%). Ernstige vermoeidheid kwam bij een derde van het cohort voor; al deze personen hadden tegelijkertijd ook pijn. Er was een lichte toename in de prevalentie van maag-darmklachten. De prevalentie van andere gezondheidsklachten staan in figuur 1.

Mobiliteit en ADL-zelfstandigheid

Over 14 jaar tijd was er een lichte afname van het percentage volwassenen met CP dat binnenshuis liep (83 naar 71%) en rondom het huis liep (66 naar 60%). Lange afstanden buitenshuis (> 100m) werden nauwelijks lopend afgelegd, op beide meetmomenten deed slechts 15% dit. Ook nam de Barthel Index af ($17,1 \pm 4,8$ naar $16,3 \pm 5,6$); 28% ging ten minste twee punten achteruit. De Barthel Index was op beide meetmomenten hoger bij GMFCS-niveaus I-III dan niveaus IV-V ($18,8 \pm 1,8$ - $18,3 \pm 2,9$ versus $9,4 \pm 5,8$ - $7,3 \pm 5,4$).

> Figuur 2. Arbeidsstatus en gemiddeld aantal uur/week verzameld in 1996, 2000 en 2010 (n = 65).



Arbeidsparticipatie

Over 14 jaar tijd was de mate van arbeidsparticipatie stabiel (38-45%, figuur 2, links). Voor volwassenen met CP lag de arbeidsparticipatie wel lager dan in de algemene bevolking (75-86%). Voor volwassenen met unilaterale CP was er een trend dat arbeidsparticipatie afnam (68 naar 55%), terwijl volwassenen met bilaterale CP juist een toename in arbeidsparticipatie lieten zien (20 naar 36%). Over het algemeen hadden volwassenen met unilaterale CP, GMFCS-niveaus I-III, of met tenminste gemiddelde intelligentie vaker werk. Het gemiddeld aantal uur/week werk nam iets af over de tijd (35,0-31,2 uur/week, figuur 2, rechts), maar verschilde niet van de algemene bevolking. Voor mannen met CP was het aantal uur/week onveranderd ($36,7 \pm 8,5$ naar $39,1 \pm 5,8$ uur/week), terwijl vrouwen met CP hierin juist een sterke afname lieten zien ($32,3 \pm 6,4$ naar $23,4 \pm 7,4$ uur/week, $p < 0,001$). Eenzelfde patroon is bekend in de algemene Nederlandse bevolking in deze leeftijdsrange (mannen: 36,0 naar 40,5 uur/week; vrouwen: 30,4 naar 26,2 uur/week).

DISCUSSIE

Deze longitudinale studie laat zien welke langetermijngevolgen volwassenen met CP in de leeftijd van 21 tot 45 jaar ervaren. Zowel voor stoornissen, als voor activiteiten en participatie is het beloop in kaart gebracht. De belangrijkste bevindingen in het beloop over 10 of 14 jaar tijd waren 1) een toename van zorgen om, en beperkingen door de gezondheid, 2) een toename van pijn, 3) een afname in mobiliteit en ADL-zelfstandigheid, 4) een stabiele arbeidsstatus, en 5) een afname in werkuren per week.

Een toenemend percentage maakt zich zorgen om zijn/haar gezondheid of ervaart hierdoor beperkingen in activiteiten. Desalniettemin geeft de meerderheid aan zich meestal gezond te voelen. Deze paradox is niet uniek: mensen met een chronische aandoening rapporteren vaak een goede algemene gezondheid, naast de specifieke gevolgen van hun aandoening en gezondheidsproblemen.¹⁶ De ervaren gezondheid van volwassenen met CP was slechter bij pijn, ernstige vermoeidheid, mindere mobiliteit en een hogere mate van ADL-afhankelijkheid. Het ontstaan van secundaire klachten kan mogelijk leiden tot een achteruitgang in mobiliteit, ADL en gezondheidsgerelateerde kwaliteit van leven bij volwassenen met CP.¹⁷ In de algemene bevolking ontstaat deze achteruitgang niet voor het vijftigste levensjaar.¹⁸

De gevonden prevalentie van pijn en ernstige vermoeidheid bij volwassenen met CP bevestigen de bestaande literatuur.^{3,4} Eerder gerapporteerde achteruitgang in mobiliteit en zelfverzorging wordt ook door onze resultaten bevestigd.⁴⁻⁶ Hoewel de meeste volwassenen met CP geen ondersteuning nodig hebben bij hun ADL-activiteiten, neemt de behoefte hieraan en aan (loop)hulpmiddelen wel toe. Dit komt overeen met onze klinische ervaring.

Voor volwassenen is arbeid een belangrijk aspect van participatie. De arbeidsparticipatie van volwassenen met CP blijkt stabiel over de tijd, maar ligt aanzienlijk lager dan die van de algemene bevolking. Ook onder jongvolwassenen met CP (16-20 jaar) is het percentage werkenden laag.¹⁹ Het lijkt er dus op dat

personen met CP al vanaf jonge volwassenheid een achterstand op de arbeidsmarkt hebben en dat dit niet substantieel verbetert. Deze achterstand geldt met name voor personen met bilaterale CP, GMFCS-niveaus IV en V of een intellectuele beperking. We vonden bij vrouwen met CP een afname van werkuren per week, vergelijkbaar met de algemene bevolking. Dit wordt waarschijnlijk verklaard door het culturele kenmerk dat in Nederland veel vrouwen in deeltijd werken gerelateerd aan een dubbele rol van primaire verzorger en werknemer.²⁰

Een beperking van deze studie is dat niet alle uitkomstmaten op ieder meetmoment beschikbaar waren, waardoor sommige resultaten op een relatief kleine sample zijn gebaseerd. Ook is door het gebruik van PROMs in deze studies het beloop van meer klinisch meetbare gevolgen van CP (bijv. spasticiteit) nog onbekend. Daarnaast is het verdere beloop in latere volwassenheid (> 45 jaar) nog onbekend. Een sterk punt is de follow-up van personen met CP in volwassenheid.

CONCLUSIE

De resultaten van dit onderzoek tonen het belang van regelmatige monitoring van volwassenen met CP, waarmee preventie en behandeling tijdig kunnen worden ingezet, en een toename van klachten kan worden beperkt. In het bijzonder moet men alert zijn op klachten als pijn, vermoeidheid en achteruitgang in mobiliteit en ADL.

REFERENTIES

1. Odding E, Roebroek ME, Stam HJ. The epidemiology of cerebral palsy: incidence, impairments and risk factors. *Disabil Rehabil* 2006;28:183-91.
2. The Economic Impact of Cerebral Palsy in Australia in 2007. *Access Economics*; 2008.
3. Slot WM van der, Nieuwenhuijsen C, Berg-Emons RJ van den, Bergen MP, Hilberink SR, Stam HJ, Roebroek ME. Chronic pain, fatigue, and depressive symptoms in adults with spastic bilateral cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2012;54:836-42.
4. Opheim A, Jahnsen R, Olsson E, Stanghelle JK. Walking function, pain, and fatigue in adults with cerebral palsy: a 7-year follow-up study. *Dev Med Child Neurol* 2009;51:381-8.
5. Morgan P, McGinley J. Gait function and decline in adults with cerebral palsy: a systematic review. *Disabil Rehabil* 2014;36:1-9.
6. Bottos M, Feliciangeli A, Sciuto L, Gericke C, Vianello A. Functional status of adults with cerebral palsy and implications for treatment of children. *Dev Med Child Neurol* 2001;43:516-28.
7. Michelsen SI, Uldall P, Kejs AM, Madsen M. Education and employment prospects in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 2005;47:511-7.
8. Dussen L van der, Nieuwstraten W, Roebroek M, Stam HJ. Functional level of young adults with cerebral palsy. *Clin Rehabil* 2001;15:84-91.
9. Hilberink SR, Roebroek ME, Nieuwstraten W, Jalink L, Verheijden JM, Stam HJ. Health issues in young adults with cerebral palsy: towards a life-span perspective. *J Rehabil Med* 2007;39:605-11.
10. Benner JL, Hilberink SR, Veenis T, Slot WMA van der, Roebroek ME. Course of employment in adults with cerebral palsy over a 14-year period. *Dev Med Child Neurol* 2017. Epub ahead of print.
11. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, Wood E, Galuppi B. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 1997;39:214-23.
12. Kloot WA van der, Oostendorp RA, Meij J van der, Heuvel J van den. De Nederlandse versie van 'McGill pain questionnaire': een betrouwbare pijnvragenlijst. *Ned Tijdschr Geneesk* 1995;139:669-73.
13. Merkies IS, Schmitz PI, Samijn JP, Meche FG van der, Doorn PA van. Fatigue in immune-mediated polyneuropathies. *European Inflammatory Neuropathy Cause and Treatment (INCAT) Group. Neurology* 1999;53:1648-54.
14. Post MW, Asbeck FW van, Dijk AJ van, Schrijvers AJ. Nederlandse interviewversie van de Barthel-index onderzocht bij dwarslaesiepatiënten. *Ned Tijdschr Geneesk* 1995;139:1376-80.
15. Centraal Bureau voor de Statistiek. Arbeid en sociale zekerheid. <http://www.cbs.nl/nl-NL/menu/themas/arbeid-sociale-zekerheid/methoden/begrippen/default.htm?ConceptID=825> (geraadpleegd 25-02-2016)
16. Schwartz CE, Andresen EM, Nosek MA, Krahn GL, Measurement REPoHS. Response shift theory: important implications for measuring quality of life in people with disability. *Arch Phys Med Rehabil* 2007;88:529-36.
17. Klingbeil H, Baer HR, Wilson PE. Aging with a disability. *Arch Phys Med Rehabil* 2004;85:S68-73; quiz S4-5.
18. Hopman WM, Berger C, Joseph L, Zhou W, Prior JC, Towheed T, Anastassiades T, Adachi JD, Hanley DA, Papadimitropoulos EA, Kirkland S, Kaiser SM, Josse RG, Goltzman D. Prospectively measured 10-year changes in health-related quality of life and comparison with cross-sectional estimates in a population-based cohort of adult women and men. *Quality of Life Research* 2014;23:2707-21.
19. Verhoef JA, Bramsen I, Miedema HS, Stam HJ, Roebroek ME, Transition, Lifespan Research Group South West N. Development of work participation in young adults with cerebral palsy: a longitudinal study. *J Rehabil Med* 2014;46:648-55.
20. Damaske S, Frech A. Women's work pathways across the life course. *Demography* 2016; 53:36591.

DANKBETUIGING

Wij danken Loes Jalink, Martinus Terburg, Roland Brandwijk en Iris Bethlehem voor hun bijdrage aan het studieprotocol, dataverzameling en dataverwer-

> PUBLICATIE

king. In het bijzonder danken wij Wilbert Nieuwstraten (overleden in 2010), voor zijn conceptualisering en setup van de cohortstudie.

Dit onderzoeksproject is mede mogelijk gemaakt door Kinderrevalidatie Fonds Adriaanstichting en de Phelps Stichting voor Spastici.

Correspondentie

j.benner@erasmusmc.nl

Abstract

Introduction: Adults with cerebral palsy (CP) experience health problems, functional limitations and restrictions in participation that continue throughout the lifespan.

Aim: Describe the long-term course of perceived health, health issues, functional level and employment in adults with CP.

Methods: Eighty-eight adults with CP formerly known in pediatric rehabilitation participated in a prospective cohort study. Patient-reported outcome measures (PROMs) were collected in 1996, 2000 and 2010 (age in 2010 35-45 years). The course of outcomes were analyzed using generalized estimating equations.

Results: Over a 10-year period, the proportion of participants worrying about their health and indicating that health problems limit their activities increased (29-54% and 19-45%, respectively). Nonetheless, the majority continued reporting to usually feel healthy (93-86%). Prevalence of some health issues increased over time, such as pain (58-71%). Over a 14-year period, walking performance declined (indoors 83-71%), and mobility and self-care deteriorated (Barthel Index 17.1-16.3). Employment rate was stable over 14 years (38-45%), but lower compared to the general population. Work hours declined (35.0-31.2 hours/week), especially among females (32.3-23.4 hours/week).

Conclusions: Although many adults with CP continued to report good general health, many perceived increasing impact of CP in the long-term. The most notable consequences were pain, severe fatigue and functional decline. Participation in employment was stable, but low compared to the general population. Moreover, work hours declined over time. Systematic follow-up of adults with CP is required to timely detect and intervene on health issues, functional deterioration and participation restrictions

Keywords: cerebral palsy, adult, long-term follow-up, perceived health, health issues, employment.