

KU LEUVEN

FACULTEIT PSYCHOLOGIE EN
PEDAGOGISCHE WETENSCHAPPEN



Spina Bifida in het dagdagelijkse leven: een exploratieve studie

Masterproef aangeboden tot het
verkrijgen van de graad van
Master of Science in de
psychologie

Door
Jill De Coster

promotor: **Dr. Jurgen Lemièr**

copromotor: **Prof. Dr. Nady Van Broeck**

m.m.v: **Sam Geuens**

2016-2017 & 2017-2018

KU LEUVEN

FACULTEIT PSYCHOLOGIE EN
PEDAGOGISCHE WETENSCHAPPEN



Spina Bifida in het dagdagelijkse leven: een exploratieve studie

Masterproef aangeboden tot het
verkrijgen van de graad van
Master of Science in de
psychologie

Door
Jill De Coster

promotor: **Dr. Jurgen Lemièr**

copromotor: **Prof. Dr. Nady Van Broeck**

m.m.v: **Sam Geuens**

2016-2017 & 2017-2018

SAMENVATTING

Spina bifida is een aangeboren neuraalbuisdefect dat meestal gepaard gaat met een motorisch en sensorisch disfunctioneren, maar mogelijks ook cognitieve gevolgen heeft. Deze aandoening heeft, naar verwachting, heel wat impact op het dagdagelijks leven van de patiënt. Het is dan ook bijzonder nuttig om onderzoek te voeren naar deze impact, aangezien dit kan zorgen voor een optimalisatie van de hulpverlening en mogelijks ook kan leiden tot (preventieve) maatregelen om in de toekomst de impact van spina bifida te verkleinen.

Deze masterproef wil de impact van spina bifida op het dagelijks leven in kaart brengen. De algemene vraagstelling luidt dan ook :“Heeft spina bifida een impact op het dagdagelijks leven van volwassenen, adolescenten en kinderen met spina bifida?”. Gelet op de uitgebreidheid van dit onderwerp werd de analyse uiteindelijk beperkt tot zeven levensdomeinen en de kwaliteit van leven. Deze masterproef tracht de impact op twee manieren in kaart te brengen. Vooreerst wordt een overzicht gegeven van alle hieromtrent beschikbare literatuur. Dit overzicht kwam tot stand via een zoekopdracht in Pubmed op basis van titel en abstract, aan de hand van verschillende screeningscriteria. Toen bleek dat het aantal artikels te hoog was, werd een screening gehouden op basis van reviewartikels en hierna een meer kritische screening o.b.v. de relevantie van de studies in vergelijking met de eerste keer. Uiteindelijk werden 51 artikels geïncludeerd.

Ten tweede werd een empirisch onderzoek opgezet, waarbij twee vragenlijsten werden ontworpen, voor kinderen en adolescenten enerzijds en voor volwassenen anderzijds. De participanten die deelnamen aan het empirisch onderzoek, behoorden tot de spina bifida conventie van UZ Leuven te België. Uiteindelijk werden er 72 vragenlijsten teruggestuurd door de volwassenen en 48 door de kinderen en adolescenten. De invloed van spina bifida op professioneel gebied, schools functioneren, sociaal functioneren, mobiliteit, zelfstandigheid, huisvesting , vrijetijdsbesteding en kwaliteit van leven werd zowel in de literatuur als in het empirisch onderzoek aangetoond.

Spina bifida blijkt een duidelijke impact te hebben op verschillende levensdomeinen en ook op de kwaliteit van leven, zowel bij volwassenen als bij kinderen en adolescenten. Er dient dan ook voldoende aandacht te worden besteed aan dit thema. Deze masterproef heeft bovendien betrekking op een vrij nieuw onderzoeksdomein, waarin nog vele vragen onbeantwoord zijn. Toekomstig onderzoek is bijgevolg nodig om reeds bestaande bevindingen opnieuw na te gaan, maar ook om meer longitudinale studies en verklarend onderzoek te doen.

WOORD VAN DANK

“Terugblikkend op de afgelegde weg, zal je glimlachen om de kiezelstenen die eens bergen
leken”

P. Freytag

Een thesis is niet alleen de verdienste van de betrokken student. Dit werk kwam er immers door begeleiding en feedback van anderen, die ik hier dan ook graag wil bedanken.

In de eerste plaats mijn promotor, Dokter J. Lemiere, voor het aanreiken van mijn thesisonderwerp en het geven van de nodige feedback.

Ten tweede mijn dagelijks begeleider, Meneer S. Geuens, voor de goede begeleiding, leerzame feedback en zijn luisterend oor.

Vervolgens ook het spina bifida team van UZ Leuven voor alle hulp bij het tot stand brengen en ontwikkelen van dit onderzoek.

Verder wil ik alle patiënten die meewerkten aan dit onderzoek, ontzettend hard bedanken voor hun bereidwilligheid en engagement. Hun inzet was hartverwarmend.

Tot slot wil ik een speciaal dankwoord richten aan mijn ouders, zus en Thomas voor de steun en het nalezen van deze masterproef.

Toelichting aanpak en eigen inbreng

Toen ik dit masterproefonderwerp toegewezen kreeg, moest ik mij eerst inlezen in de literatuur rond de chronische aandoening, spina bifida. Hiertoe kreeg ik een powerpoint-presentatie en een brochure van mijn dagelijks begeleider, Sam Geuens. Op eigen initiatief heb ik een aantal artikels en twee boeken doorgenomen. Op basis van al deze informatie kwam de uitgebreide inleiding van deze masterproef tot stand.

Wat de literatuurstudie betreft, heeft mijn dagelijks begeleider mij toegelicht hoe ik deze op een correcte manier kon uitvoeren. Ikzelf heb daarna eigenhandig de zoektermen opgesteld. Ook de digitale zoekopdracht in Pubmed met de bijhorende data-extractie werd volledig door mij uitgevoerd. Aan de hand van deze informatie werd de literatuurstudie opgesteld. Mijn dagelijks begeleider, Sam Geuens, heeft mij weliswaar steeds ondersteund met feedback en advies.

Vooraleer het empirisch onderzoek van start kon gaan, diende ik twee vragenlijsten te ontwerpen, één voor volwassenen en één voor kinderen en adolescenten. Ik heb deze opgesteld aan de hand van relevante literatuur en verder aangevuld met vragen die naar voren kwamen uit het overleg met het spina bifida team. Concreet stelde ik de vragen op, waarna ik feedback kreeg over relevantie, de verschillende antwoordmogelijkheden en woordkeuze. De vragenlijsten betreffende quality of life werden in overleg met mijn dagelijks begeleider, Sam Geuens, en mijn promotor, Jurgen Lemiere, gekozen. De aanspreekbrief heb ik zelf opgesteld en werd verbeterd door mijn dagelijks begeleider, die ook alle informed consents ontwikkelde en instond voor de aanvraag van dit empirisch onderzoek bij de Ethische Commissie. Eenmaal een positief advies bekomen werd, heb ik eigenhandig alle brieven klaargemaakt om te versturen. Twee medewerksters van het spina bifida team hebben na verloop van tijd een aantal patiënten waarvan nog geen respons ontvangen werd, aangesproken tijdens hun raadpleging en verzamelden op deze manier nog een aantal vragenlijsten. De overige patiënten heb ik allen telefonisch gecontacteerd.

Het ingeven van de data viel volledig onder mijn verantwoordelijkheid. Ook het proces van het opstellen van de onderzoeksvragen tot het uitwerken van de resultaten behoorde tot mijn takenpakket. Mijn dagelijks begeleider heeft mij weliswaar een aantal artikels aangereikt omtrent de scoring van de quality of life vragenlijsten. Hierna werd het resultatendeel en de discussie geschreven.

Gedurende het hele proces waren mijn dagelijks begeleider en promotor steeds beschikbaar om de nodige feedback te geven op de geschreven hoofdstukken.

INHOUDSOPGAVE

SAMENVATTING.....	I
WOORD VAN DANK	II
TOELICHTING AANPAK EN EIGEN INBRENG.....	III
INHOUDSOPGAVE	IV
LIJST MET TABELLEN.....	VIII
LIJST MET FIGUREN	IX
DEEL 1: SPINA BIFIDA.....	1
1. Inleiding	1
2. Wat is spina bifida?.....	1
3. Verschillende vormen van spina bifida	3
3.1 Spina bifida occulta.....	3
3.2 Spina bifida meningocele.....	3
3.3 Spina bifida myelomeningocele.....	4
4. Prevalentie	4
5. Etiologie	5
6. Prognose.....	6
7. Gevolgen.....	7
7.1 Chiari - II- malformatie en ataxie.....	7
7.2 Hydrocephalus	7
7.3 Motorische beperkingen.....	8
7.4 Gevoelstoornissen	8
7.5 Groei en gewicht	9
7.6 Darm- en blaasproblemen	9
7.7 Cognitief functioneren	10
7.7.1 <i>Executieve functies</i>	10
7.7.2 <i>Oog-handcoördinatie en grijpfunctie</i>	10

7.7.3 Zwakke visuele perceptie en ruimtelijk inzicht	10
7.7.4 Geheugen	10
8. Psychosociaal	11
9. Diagnostische marker en behandeling.....	13
10. De aanzet tot deze studie.....	16
DEEL 2: LITERATUURSTUDIE	17
1. Inleiding	17
2. Doel van het onderzoek.....	17
2.1 Probleemstelling	17
2.2 Onderzoeksvragen.....	17
3. Methodologie	19
3.1 Zoekstrategie.....	19
3.2 Selectiecriteria.....	19
4. Data extractie.....	20
5. Resultaten	40
5.1 Huisvesting	40
5.2 Professionele loopbaan	40
5.3 Ontspanningsactiviteiten en sportparticipatie	43
5.4 Mobiliteit	46
5.5 Zelfstandigheid	49
5.6 Relaties.....	51
5.7 Schools functioneren.....	54
5.8 Kwaliteit van leven	56
6. Samenvatting	61
7. Brug met literatuurstudie.....	65
DEEL 3: EMPIRISCH ONDERZOEK.....	66
1. Inleiding	66
2. Onderzoeksvragen	66
2.1 Deel A.....	66
2.2 Deel B	66

2.2.1 Hypotheses	67
3. Participanten	67
4. Materiaal.....	68
5.Pilootstudie	71
6.Methodologie	71
7. Dataverwerking en statistische analyses	72
8. Resultaten	74
8.1 Inleiding.....	74
8.2 Resultatendeel: Deel A.....	74
8.2.1 Beschrijvende statistiek voor de volwassenen met spina bifida.....	74
8.2.1.1 Algemene gegevens	74
8.2.1.2 Werk.....	76
8.2.1.3 Opleiding	77
8.2.1.4 Sociaal functioneren.....	78
8.2.1.5 Vrije tijd.....	80
8.2.1.6 Huisvesting	80
8.2.1.7 Mobiliteit	80
8.2.1.8 Zelfstandigheid	81
8.2.1.9 Kwaliteit van leven	82
8.2.2 Beschrijvende statistiek voor de kinderen met spina bifida	83
8.2.2.1 Algemene gegevens	83
8.2.2.2 Opleiding	85
8.2.2.3 Sociaal functioneren.....	86
8.2.2.4 Vrije tijd.....	86
8.2.2.5 Huisvesting	87
8.2.2.6 Mobiliteit	87
8.2.2.7 Zelfstandigheid	88
8.2.2.8 Kwaliteit van leven	89
8.3 Resultatendeel: Deel B.....	90
8.3.1 Bespreking van de onderzoeksvragen, gebaseerd op de literatuurstudie	90
8.3.1.1 Onderzoeksvraag 1	90
8.3.1.2 Onderzoeksvraag 2.....	90
8.3.1.3 Onderzoeksvraag 3.....	90
8.3.1.4 Onderzoeksvraag 4.....	91
DEEL 4: DISCUSSIE.....	92

1. Bevindingen	92
2. Beperkingen.....	102
3. Toekomstig onderzoek.....	102
CONCLUSIE	104
REFERENTIELIJST.....	105
BIJLAGEN	119

LIJST MET TABELLEN

<i>Tabel N°</i>	<i>Omschrijving</i>	<i>Pagina</i>
Tabel 1	Derde Screening opnieuw op basis van Abstract (Criterium drie)	39
Tabel 2	Een Overzicht van de belangrijkste Conclusies uit de Literatuurstudie	61
Tabel 3	Gemiddelde Totaalscore en Gemiddelden per Subschaal met bijhorende Standaarddeviaties, behaald op de SF-36	82
Tabel 4	Gemiddelde Totaalscore en Gemiddelden per Subschaal met bijhorende Standaarddeviaties, behaald op de PEDS-QL	89
Tabel 5	Graad van Zelfstandigheid per Dagelijkse Activiteit, weergegeven aan de hand van Percentages met bijhorende Steekproefgrootte (Volwassenen)	123
Tabel 6	Graad van Zelfstandigheid per Dagelijkse Activiteit, weergegeven aan de hand van Percentages met bijhorende Steekproefgrootte (Kinderen en Adolescenten)	124
Tabel 7	De precieze Percentages voor sommige Variabelen die afgerond weergegeven werden in de Tekst	126

LIJST MET FIGUREN

<i>Figuur N°</i>	<i>Omschrijving</i>	<i>Pagina</i>
Figuur 1	Flowchart voor zoekterm, ‘spina bifida and housing’	21
Figuur 2	Flowchart voor zoekterm, ‘spina bifida and leisure activities’	23
Figuur 3	Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and relationships’	25
Figuur 4	Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and independence’	27
Figuur 5	Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and work’	29
Figuur 6	Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and mobility’	31
Figuur 7	Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and social functioning’	33
Figuur 8	Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and school’	35
Figuur 9	Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and quality of life’	37
Figuur 10	Overzicht van de ondervonden mate van levenskwaliteit bij de volwassenen met spina bifida(N = 70)	75
Figuur 11	Overzicht van de verdeling betreffende verschillende arbeidsposities met bijhorende percentages (N = 71)	76
Figuur 12	Overzicht van hoogst behaalde diploma bij de volwassenen met spina bifida, weergegeven via percentages	77
Figuur 13	Relationele status van de volwassenen met spina bifida, weergegeven aan de hand van percentages (N = 67)	78
Figuur 14	Overzicht van de mate waarin men seksuele problemen ondervindt door spina bifida, weergegeven aan de hand van percentages	79
Figuur 15	Overzicht van de ondervonden mate van levenskwaliteit bij de kinderen en adolescenten met spina bifida (N = 48)	84
Figuur 16	Overzicht van het huidig onderwijsniveau van de kinderen en adolescenten met spina bifida (N = 38)	85
Figuur 17	De mate waarin men extra begeleiding genoot tijdens het lager (links) (N = 28) en secundair (rechts) (N = 17) onderwijs, gemeten bij kinderen en adolescenten met spina bifida	86
Figuur 18	De mate van werktevredenheid bij beroepsbeoefenaars en vrijwilligers met spina bifida (N = 43)	119
Figuur 19	Stressniveau bij beroepsbeoefenaars en vrijwilligers met spina bifida (N = 42)	119
Figuur 20	De mate waarin men extra begeleiding heeft gekregen tijdens het lager onderwijs, gemeten bij volwassenen met spina bifida (N = 59)	120

Figuur 21	De mate waarin men extra begeleiding heeft gekregen tijdens het secundair onderwijs, gemeten bij volwassenen met spina bifida (N = 58)	120
Figuur 22	De mate waarin men extra begeleiding heeft gekregen tijdens het hoger onderwijs, gemeten bij volwassenen met spina bifida (N = 34)	121
Figuur 23	De mate waarin volwassenen met spina bifida op bezoek gaan bij familie en vrienden (N = 71)	122

DEEL 1: SPINA BIFIDA

1. Inleiding

Het thema van deze masterproef behelst het onderzoek naar de impact van spina bifida op het dagdagelijks leven van volwassenen, adolescenten en kinderen met spina bifida. Hoewel er al veel geweten is over deze aandoening, zijn er omtrent de impact van spina bifida op het dagelijks leven nog veel onduidelijkheden en vragen. Daarom werd een studie hiernaar opgestart. Via een zelfontworpen vragenlijst zijn een aantal levensdomeinen in kaart gebracht. Deze zijn werk, opleiding, sociaal functioneren, vrije tijd, huisvesting, mobiliteit, zelfstandigheid en ook kwaliteit van leven werd geïnccludeerd. De deelnemers zijn volwassenen, kinderen en adolescenten die lijden aan een vorm van spina bifida. Tevens worden ze opgevolgd door het universitair ziekenhuis van Leuven.

Ter inleiding van deze masterproef wordt de aandoening gedetailleerd besproken. Een eerste luik omvat uitleg over het ziektebeeld zelf. Wat houdt spina bifida in? Tevens wordt er aandacht besteed aan de verschillende vormen ervan. In een tweede luik komt aan bod hoe vaak spina bifida in België voorkomt. Dit wordt gestaafd aan de hand van prevalentiecijfers. In een derde en vierde luik wordt respectievelijk dieper ingegaan op de etiologie en de prognose van spina bifida. Daarnaast wordt gekeken naar de gevolgen ervan op medisch en psychosociaal vlak. Welke invloed kan deze aandoening hebben op de hersenen? Welke psychosociale problemen kunnen optreden tijdens de verschillende levensfasen? Ter afsluiting wordt de behandeling van spina bifida besproken.

2. Wat is spina bifida?

Spina bifida is een Latijnse term en betekent letterlijk ‘een gespleten wervelkolom’. Het is een aangeboren aandoening waarbij er een probleem optreedt in het samengroeien van linker en rechter gelegen delen in de rug (Broere, Von der Dunk, Oosting-de-Boer, Rootlieb, & De Voogt, 1983). Meer specifiek zijn bij deze aandoening de wervelbogen niet goed gesloten. Bepaalde structuren zoals het ruggenmerg kunnen hierdoor buiten de wervelbogen gelegen zijn en beschadigd raken.

Het is een aandoening die valt onder de noemer neurale buisdefecten. De neurale buis ontwikkelt zich in het begin van de zwangerschap waarbij in het deel vooraan verwijdingen ontstaan waaruit later de verschillende delen van de hersenen zich ontwikkelen. Het overige deel wordt uiteindelijk ruggenmerg. Er kunnen problemen optreden omtrent het sluiten van de beide uiteinden van de neurale buis. Wanneer de sluiting ter hoogte van de neuroporus

anterior niet plaatsvindt, bestaat de kans dat vooral de grote hersenen onvolledig of niet gevormd worden. Deze aandoening noemt anencefalie. Wanneer echter de neuroporus posterior niet sluit, wordt er schade opgelopen aan het ruggenmerg. Deze aandoening staat bekend als spina bifida. In open vormen ontstaat een zwelling, aan het oppervlak van de rug, die omgeven wordt door ruggenmergvlies. Deze blaas wordt meningocèle genoemd (Broere et al., 1983).

Binnenin het wervelkanaal loopt van boven naar beneden het ruggenmerg. Deze laatste ligt in de durale zak die uit hersenvliezen bestaat. Tevens wordt het ruggenmerg omringd door cerebrospinaal vocht opdat het schokvrij blijft. Tussen twee wervelbogen ontspringen telkens vanuit het ruggenmerg twee zenuwwortels die ook omgeven worden door hersenvliezen. Zij komen bovendien op elk niveau van het wervelkanaal voor. Deze laatste en dus ook het ruggenmerg worden omgeven door wervelbogen. De menselijke wervelkolom bestaat uit zeven nekwerfels (C1 tot en met C7), 12 borstwerfels (Th1 tot en met Th12), vijf lendenwerfels (L1 tot en met L5) en tot slot het heiligbeen of sacrum met het staartbeentje.

Spina bifida kan optreden in verschillende delen van de wervelkolom. Meestal bevindt het zich ter hoogte van de lendenwerfels (lumbaal), maar tevens vormen het heiligbeen (sacraal) of de borstwerfels (thoracaal) een optie (Choi, Ji, & Han, 2016; Schechter et al., 2015; Wagner et al., 2015). Naast de ernst van beschadiging aan het ruggenmerg is de locatie van de meningocèle belangrijk voor de mate van uitvalverschijnselen. Het ruggenmerg bevat verschillende zenuwcellen die elk specifieke spiergroepen aansturen. Beschadiging aan deze zenuwcellen kan resulteren in spierzwakte van de bijhorende spiergroepen. Hoe lager een letsel gelegen is, hoe minder ruggenmerg en dus ook hoe minder zenuwcellen beschadigd zijn. De ernst op vlak van spierzwakte en gevoelsstoornissen zal daardoor kleiner zijn in vergelijking met een hoger gelegen letsel. De ernst van spina bifida kan dus verschillen van patiënt tot patiënt, afhankelijk van de plaats van het letsel. Zo zullen mensen met sacrale spina bifida myelomeningocèle (cfr. infra) op of in de buurt van een normaal level kunnen functioneren en kennen zij minder complicaties in vergelijking met personen met een lumbaal of thoracaal letsel (Brinker et al., 1994). Zo toonden Hoffer, Feiwell, Perry, Perry, en Bonnett (1973) in hun wetenschappelijk onderzoek aan dat alle participanten met een thoracaal letsel niet in staat waren om te stappen, terwijl dit wel het geval bleek voor zij die sacrale spina bifida myelomeningocèle hadden.

Desalniettemin kunnen bepaalde zenuwcellen die zich onder het beschadigde gebied bevinden nog steeds actief zijn. Echter vindt er geen coördinerende sturing plaats van de hersenen vermits hun verbinding met de bijhorende zenuwcellen door het beschadigde

ruggenmerg loopt. Als gevolg treedt er ter hoogte van de betrokken spiergroepen geen verlamming op, maar worden zij net gekenmerkt door overactiviteit. Dit wordt benoemd met de term spasticiteit (Broere et al., 1983).

3. Verschillende vormen van spina bifida

Onder de noemer neurale buisdefecten valt spina bifida (cfr. supra). Deze laatste afwijking kan tevens meer specifiek verdeeld worden in 3 types die hieronder besproken worden: spina bifida occulta, spina bifida meningocele en spina bifida myelomeningocele. Het is cruciaal om dit onderscheid te maken vermits deze fenotypes sterk verschillen in ernstgraad.

3.1 Spina bifida occulta

Spina bifida occulta komt vaker voor dan de twee andere types. Naar schatting zou 12,4% van de bevolking hieraan lijden (Eubanks & Cheruvu, 2009). In de spina bifida populatie zelf is spina bifida myelomeningocele het meest voorkomend. Zo werden 225 mensen met spina bifida longitudinaal opgevolgd in een Amerikaans onderzoek (Liu, Greiman, Casey, Mukherjee, & Kielb, 2016). Er werd vastgesteld dat 86,7% leed aan spina bifida myelomeningocele terwijl spina bifida occulta slechts bij 2,7% voorkwam.

Het valt onder de noemer gesloten neurale buisdefecten. De wervelbogen zijn opnieuw niet gesloten waardoor bepaalde structuren buiten de wervelkolom kunnen liggen, maar een intacte huid bedekt hen. De onderhuidse aandoening is dus niet zichtbaar en daardoor wordt dit type zelden gedetecteerd bij prenatale diagnostiek. Het is tevens een milde vorm van spina bifida dus vele mensen ondervinden hiervan geen hinder. Daarom wordt spina bifida occulta vaak op latere leeftijd ontdekt. Meestal komt het aan het licht doordat de patiënt rugklachten of urologische problemen ontwikkelt want ondanks het feit dat deze aandoening weinig hinder kent, zijn beperkingen niet uitgesloten. Zo komt incontinentie vaak voor bij deze groep. Daarnaast bestaan er ook enkele markers waardoor je deze aandoening kan herkennen: beharing, een moedervlek of een lipoom op de plaats van het letsel. Een lipoom is een goedaardig gezwel van vetweefselcellen.

3.2 Spina bifida meningocele

Dit type komt niet frequent voor. Opnieuw zijn de wervels niet volledig gesloten, maar het ruggenmerg wordt niet naar buiten gestuwd (Sahmat et al., 2017). Dit laatste kenmerk vormt een verschil in vergelijking met spina bifida myelomeningocele. Ruggenmergvliezen

en cerebrospinaal vocht vormen een vochtblaas op de rug (Song, Glass, & Kent, 2016; UZ Leuven, 2016).

3.3 Spina bifida myelomeningocele

Dit is de meest ernstige vorm van spina bifida en zoals eerder vermeld komt dit type het meest voor binnen de spina bifida populatie, namelijk 86,7% in het reeds besproken Amerikaans onderzoek (cfr. infra.). De wervelbogen zijn opnieuw niet gesloten en er wordt ruggenmerg, ruggenmergvliezen en cerebrospinaal vocht naar buiten gestuwd. Allen zijn beschadigd en niet goed ontwikkeld. Er ontstaat op die manier een blaas op de rug, de zogenaamde meningocèle.

Bij spina bifida myelomeningocele treden er inter-individuele verschillen op, betreffende de ernst van de handicap. De mate van functioneren hangt namelijk onder andere af van de locatie van het letsel. Hoe hoger het letsel, hoe meer zenuwcellen aangetast zijn en bijgevolg hoe ernstiger de spierzwakte (cfr. supra). Daarenboven gaat een hoger letsel ook gepaard met meer zwakke cognitieve en motorische resultaten en ernstigere hersenmisvormingen. Dit laatste komt uitsluitend voor bij deze vorm van spina bifida en vormt dus een uitsluitingscriterium. Een Chiari - II- malformatie (cfr. infra) wordt teruggevonden bij maar liefst 90% van de mensen met spina bifida myelomeningocele. Ook een dysgenesie van het corpus callosum komt frequent voor. Beiden hebben op hun beurt een invloed op cognitieve functies en gedrag (Fletcher & Brei, 2011). Blaas-en darmproblemen komen ook voor bij deze vorm omdat de zenuwen die controle verschaffen over deze organen zich onderaan aan het ruggenmerg bevinden.

In navolging van dit inleidend hoofdstuk zal enkel deze vorm van spina bifida verder besproken worden.

4. Prevalentie

Tussen 1991 en 2011 bedroeg de prevalentie van neurale buisdefecten in België 8-10/10 000 zwangerschappen. Uiteindelijk werden 2-4/10 000 kinderen effectief geboren met deze aandoening. Specifiek voor spina bifida bedroeg dit respectievelijk 6-8/10 000 zwangerschappen en 1-4/10 000 levendgeborenen (Hoppenbrouwers et al., 2010). In een studie in Antwerpen registreerden onderzoekers het aantal kinderen met spina bifida in de provincie Antwerpen tussen 1989 en 2012. Zij bekwamen uiteindelijk een resultaat van 5 op 10 000 geboorten (Nelen et al., 2015).

Voorts variëren de prevalentiecijfers naargelang het land. Zo komt spina bifida meer

voor in het noorden van Nederland en Noorwegen in vergelijking met Finland en Engeland¹. Tevens worden er ook etnische verschillen vastgesteld. Spina bifida komt namelijk minder voor bij vrouwen uit Spaanssprekende landen, vooral Centraal en Zuid- Amerika, in vergelijking met andere blanke vrouwen. Dit etnisch verschil lijkt echter te wijten aan verkeerde registraties bij de eerst benoemde groep. De gebruikte screeningstest blijkt namelijk niet voldoende sensitief te zijn voor gesloten vormen van spina bifida. Wat betreft geslacht komt het vaker voor bij meisjes dan bij jongens (Feuchtbaum et al., 1999).

Weliswaar is de schatting omtrent prevalentiecijfers van spina bifida een gecompliceerde zaak geworden sinds 1980. Van toen af bestaat namelijk de mogelijkheid tot prenatale diagnostiek en bij een positief resultaat kan geopteerd worden voor een vroegtijdige zwangerschapsonderbreking (Mitchell et al., 2004).

5. Etiologie

Spina bifida kan soms voorkomen als deel van een erfelijk syndroom of chromosomale aandoening, samen met andere geboortefwijkingen, bijvoorbeeld het Turner syndroom, DiGeorge syndroom,... (Rofail, Maguire, Kissner, Colligs, & Abetz-Webb, 2014; Sahmat et al., 2017). Dit wordt slechts vastgesteld bij een kleine groep patiënten. Het geldt namelijk voor minder dan 10% van de neurale buisdefecten (Sahmat et al., 2017). Ook wanneer hier geen sprake van is, speelt genetica nog steeds een rol bij neurale buisdefecten (Mitchell et al., 2004). Dit kan gestaafd worden door een aantal feiten. Eerst en vooral komen neurale buisdefecten meer voor in bepaalde etnische groepen, bijvoorbeeld Mexicanen, in vergelijking met anderen, bijvoorbeeld Aziaten (Au, Ashley-Koch, & Northrup, 2010). Ten tweede betreft de voornaamste risicofactor de aanwezigheid van spina bifida binnen de familie. Het risico op spina bifida, anencefalie of beiden is bij broers of zussen van een persoon met deze aandoening hoger in vergelijking met dat van de gezonde populatie (Mitchell et al., 2004). Dit wijst dus op het belang van genetica, maar ook omgevingsfactoren spelen een rol.

Zo vormt een inadequate inname van foliumzuur (een vitamine van de B-groep) voor en tijdens de zwangerschap een risico. Het precieze verband is tot op heden nog onbekend. Desalniettemin is er vastgesteld dat foliumzuur een rol speelt in 2 belangrijke metabolische

¹ Mitchell et al. (2004) wijden niet uit over mogelijke oorzaken, onderliggend aan deze geografische variatie. Het artikel waarop zij zich baseerden, is niet beschikbaar via Limo of Pubmed. In een ander artikel (Botto, Moore, Khoury, & Erickson, 1999) wordt weliswaar een vrij algemene verklaring naar voren geschoven, namelijk dat dit geografisch contrast veroorzaakt zou worden door een combinatie van genetische factoren en omgevingsfactoren.

processen: één hiervan is cruciaal voor nucleïnezuursynthese en de ander voor tal van methylatie reacties. Wanneer deze processen niet vlot verlopen, heeft dit een negatief effect op de verdere ontwikkeling van het embryo (Mitchell et al., 2004).

Foliumzuur supplementen vormen dus een beschermende factor voor neurale buisdefecten. Foliumzuur nemen vrouwen op via voeding. Zo is het aanwezig in sommige fruitsoorten, peulvruchten,... Toch is de opgenomen hoeveelheid via voedsel niet voldoende en supplementen worden dus aanbevolen. Een dosis van 0,4 mg moet dagelijks ingenomen worden voor en tijdens de 12 eerste weken van de zwangerschap. Indien er al een voorgeschiedenis van neurale buisdefecten is, wordt dit opgevoerd tot 4 mg. Hierdoor zou de prevalentie van neurale buisdefecten kunnen dalen met 60-70% (Hoppenbrouwers et al., 2010).

Voorts verhoogt anti-epileptische medicatie de kans op deze aandoening, meer specifiek door inname van valproïnezuur of carbamazepine. Het relatieve risico bedraagt 10 tot 20 in vergelijking met de normale populatie. Ook wanneer vrouwen deze medicatie nemen voor andere indicaties blijft het risico gelden. Het onderliggende mechanisme is tot op heden onbekend (Mitchell et al., 2004).

Tot slot vormen een lage concentratie vitamine B12, diabetes die al aanwezig is voor de zwangerschap en obesitas tevens een risicofactor (Mitchell et al., 2004).

Er kan dus besloten worden dat voor een kleine groep van spina bifida patiënten uitsluitend genetica aan de basis ligt van de aandoening, maar dat voor de meesten een complexe gen-omgevingsinteractie als oorzaak geldt.

6. Prognose

Voor het toepassen van shunts (cfr. infra) in 1960 stierven de meeste kinderen met spina bifida. Dankzij neurochirurgische ingrepen is ondertussen de overlevingskans op 1-jarige leeftijd gestegen van 20 naar 80%. Hierdoor ontstaat een nieuwe vraag: Wat is de levensverwachting van patiënten met spina bifida? Men suggereerde namelijk dat wanneer de risicojaren voorbij zijn, de overlevingskans bij spina bifida patiënten even hoog is dan in de normale populatie (Oakeshott, Hunt, Poulton, & Reid, 2009).

Oakeshott et al. (2009) deden hieromtrent onderzoek. Hun cohort bestond uit 117 kinderen met een open vorm van spina bifida. Allen werden geopereerd binnen 48 uur na hun geboorte in een ziekenhuis te Cambridge. 61% van deze kinderen overleed waarvan 34% stierf alvorens het vijfde levensjaar aanbrak. Deze studie bekwam voorts een sterftecijfer, beginnend van 5 tot 40-jarige leeftijd, dat 10 maal groter was in vergelijking met de normale

populatie. Vele sterfgevallen waren tevens onverwacht. De meest frequente oorzaken hiervoor waren epilepsie, acute hydrocephalus (cfr. infra),...

Tegenstrijdig met bovenstaande gegevens zouden echter toch actueel 75-85% van de kinderen met spina bifida de (jong)volwassenheid bereiken vanwege de medische vooruitgang (Rofail et al., 2014; Wagner et al., 2015). De rest van hun leven blijven zij echter nood hebben aan verzorging en frequente follow-up van een multidisciplinair team. Toch is de prognose, bijvoorbeeld op vlak van onafhankelijkheid en/of mobiliteit, ook hier opnieuw sterk afhankelijk van de plaats van het letsel (cfr: supra)

7. Gevolgen

7.1 Chiari - II- malformatie en ataxie

Een Chiari - II- malformatie is een aangeboren afwijking die vaak samen voorkomt met spina bifida myelomeningocele. Onderaan de schedel is er sprake van een achterhoofds gat. Dit is de plaats waar het achterhoofd op de wervelkolom zit. Bij een Chiari - II- malformatie hebben de kleine hersenen te weinig ruimte in de hersenstam en zakken daardoor in de richting van het wervelkanaal via dit achterhoofds gat. Een compressie ter hoogte van de hersenstam treedt op. Deze malformatie leidt tot een dysfunctie van de kleine hersenen. Deze laatste staan in voor het afstemmen van verschillende spiergroepen op elkaar. Doordat de kleine hersenen dus niet optimaal werken, kan ataxie optreden. Dit betreft een stoornis in de coördinatie van bewegingen (Broere et al., 1983). De kleine hersenen staan tevens in voor het evenwicht van de mens. Daarom kunnen ook evenwichtsstoornissen zich voordoen. Tevens kan het slik- en ademhalingsproblemen veroorzaken en zij vormen op hun beurt de voornaamste aanleiding tot mortaliteit in de eerste 20 levensjaren van een spina bifida patiënt (De Ruyk, Haeve, & Mertens, 2014).

7.2 Hydrocephalus

Hydrocephalus is de term die gebruikt wordt voor waterhoofd en komt voor bij 15-25% van de kinderen met spina bifida myelomeningocele. De oorzaak hiervan is een ondermaatse afvoer van het cerebrospinaal vocht ofwel wordt het vocht in te excessieve mate aangemaakt. In beide gevallen vindt er een opstapeling plaats waardoor er druk in de hersenen ontstaat. De hersenen en de schedel gaan hierdoor uitzetten.

Er zijn verschillende mogelijkheden waardoor hydrocephalus ontstaat. Het kan zich ontwikkelen na het sluiten van de lesie ter hoogte van de rug. Tevens kan het ontstaan via een Chiari - II- malformatie. De overgang tussen het verlengde merg en het ruggenmerg is hier

namelijk misvormd, maar op deze plek moet ook het cerebrosпинаal vocht wegstromen via de vierde ventrikel.

De eventuele ontwikkeling van hydrocephalus wordt gemonitord via het dagelijks meten van de schedelomtrek van het kind. Deze wordt vergeleken met normale groeicurves van de schedel. Ter behandeling wordt een shunt geplaatst. Dit houdt in dat het overtollige vocht wordt afgevoerd via een slangvormig buisje naar een ander lichaamsdeel, het hart of de buik. Wanneer er voor het hart wordt gekozen, wordt het uiteinde van het buisje meestal geplaatst in de rechterkamer vermits de kans op trombose op die manier het kleinst is. Het voordeel van een drainage naar de buik is dat dit systeem effectief blijft naarmate het kind ouder wordt. De drainage kan namelijk opgerold worden zodat deze kan uitrollen wanneer het kind groter wordt. Er kunnen echter complicaties optreden bij shunts. De voornaamste is een infectie. Het drainagesysteem moet dan onmiddellijk verwijderd worden (Broere et al., 1983).

7.3 Motorische beperkingen

Spina bifida gaat meestal gepaard met een vermindering van spierkracht. Dit kan zich uiten in verschillende vormen: een paralyse (verlamming) of een parese. Bij paralyse is er een totaal gebrek aan spierkracht terwijl er bij parese enkel sprake is van een krachtsvermindering. De plaats van de meningocèle speelt een belangrijke rol in de ernst van de paralyse. Zo zullen de onderbenen en voeten verlamd zijn wanneer de meningocèle zich bevindt ter hoogte van het heiligbeen. Ter hoogte van de lendenwervels breidt de verlamming zich echter uit over de bovenbenen en soms de onderbuik (De Ruyk et al., 2014).

Ontwrichte heupen en scoliose zijn de meest voorkomende orthopedische problemen bij kinderen met spina bifida (De Ruyk et al., 2014). Scoliose betekent dat er een zijdelingse verkromming aanwezig is in de wervelkolom en komt bij 30% van de kinderen met spina bifida voor (De Ruyk et al., 2014). Ontwrichte heupen kunnen opgelost worden via een operatie, maar er moet rekening gehouden worden met mogelijke complicaties zoals een breuk of een infectie. Behalve bovenstaande orthopedische problemen, kunnen er ook andere optreden bij de geboorte: klompvoetjes, knie-instabiliteit en breuken (De Ruyk et al., 2014).

7.4 Gevoelsstoornissen

Gevoelsstoornissen kunnen optreden in verschillende graden: totaal geen gevoel tot gevoel in lichte mate. Opnieuw is de plaats van het letsel belangrijk omdat het de grens van de sensibiliteitsstoornis gaat bepalen. Een gevoelsstoornis heeft op zijn beurt een impact op verschillende zaken. Ten eerste treden er stoornissen op in de wondgenezing van de huid.

Daarnaast kunnen allerlei huidletsels ontstaan. De huid is bovendien verschillend van de huid boven het defect. Ze is namelijk dunner, licht glanzend en de temperatuur bedraagt enige graden lager (Broere et al., 1983).

7.5 Groei en gewicht

Gedurende het eerste levensjaar verschillen kinderen met spina bifida op vlak van lengte niet van gezonde kinderen. In de kleuterjaren ontstaat echter een verschil waarvoor verschillende redenen aan de basis kunnen liggen. De beenlengte kent bijvoorbeeld een achterstand wanneer de benen verlamd zijn.

Over de jaren heen kan er bij sommige kinderen met spina bifida overgewicht optreden. De oorzaak is meestal overvoeding. Zij zijn namelijk minder actief in vergelijking met gezonde kinderen en beschikken over minder spiermassa in hun onderste lichaamshelft. Deze beide factoren hebben tot gevolg dat er minder drang is naar voedsel. Toch krijgen ze dit vaak, bijvoorbeeld van ouders, door de drijfveer: 'ze moeten al zoveel missen' (Broere et al., 1983).

7.6 Darm- en blaasproblemen

Ten eerste kunnen er blaasproblemen optreden in de vorm van incontinentie en obstipatie. De nieren maken urine aan en sturen deze richting de blaas waar het opgeslagen wordt. Kinderen leren hun blaaslediging te beheersen tussen hun tweede en vierde levensjaar. Op die manier zijn kinderen en volwassenen in staat hun blaaslediging te laten plaatsvinden op eigen gewenste tijdstippen. Sommige kinderen met spina bifida slagen hier niet in en lijden aan urine-incontinentie. Ook het omgekeerde kan optreden: urine-obstipatie. Dit wordt veroorzaakt door een gestoorde afvoerfunctie van de blaas waardoor deze niet geledigd wordt. Dit probleem moet tijdig opgemerkt worden om schade aan nierweefsel te voorkomen. De nieren produceren namelijk voortdurend urine en sturen deze richting de blaas. Wanneer de blaas niet geledigd wordt, moeten de nieren tegen een steeds hogere druk in, urine produceren met uitzetting van hogere urinewegen, zoals de urineleider, als gevolg.

Ten tweede kunnen darmproblemen ontstaan. Incontinentie kan ook hier optreden wanneer er sprake is van onvoldoende controle over de uitwendige sluitspier en een gevoelsstoornis betreffende het anusgebied. Tevens kan obstipatie optreden via een beschadiging aan de zenuwen van het onderste deel van de darm. Bovendien kunnen er zich op die plek gevoelsstoornissen manifesteren waardoor het kind niet merkt dat de darm in hoge mate gevuld is (Broere et al., 1983).

7.7 Cognitief functioneren

7.7.1 Executieve functies

Onder de noemer executieve functies vallen vaardigheden zoals plannen, het organiseren van gedrag, inhibitie en zelf-regulatie (Rose & Holmbeck, 2007). Deze functies vormen een belangrijke factor in het dagdagelijks leven. Rose en Holmbeck (2007) vonden in hun studie dat kinderen met spina bifida slechter scoorden op zowel subjectieve als objectieve metingen betreffende executief functioneren. Zelfstandig werken wordt hierdoor bemoeilijkt. Het executief disfunctioneren wordt voornamelijk veroorzaakt doordat er schade is opgelopen aan de frontale lob in de hersenen (Rose & Holmbeck, 2007).

7.7.2 Oog-handcoördinatie en grijpfunctie

Sommige kinderen met spina bifida kennen een verminderd functioneren ter hoogte van de bovenste ledematen. Hierdoor worden ze geconfronteerd met beperkingen op vlak van hand- en armbewegingen die door de ogen gecoördineerd moeten worden. Dit uit zich in moeilijkheden met voorwerpen te vouwen of te draaien. Tevens verloopt het overtekenen van geografische figuren of patronen en het tekenen van mensen moeizamer. Dit weerspiegelt zich in lagere scores op deze visuele taken in vergelijking met de norm (Dennis, Fletcher, Rogers, Hetherington, & Francis, 2001).

7.7.3 Zwakke visuele perceptie en ruimtelijk inzicht

Kinderen met spina bifida, vooral zij met een hoog letsel, ervaren minder kansen betreffende visueel - spatieel leren. Ze hebben weinig ervaring met het inschatten van afstand, diepte en ruimtelijke concepten. Hiermee samengaand scoren ze lager dan de normen op tal van visuele perceptietaken, zoals het onderscheiden van een figuur ten opzichte van de achtergrond. Verschillende onderliggende factoren dragen hier mogelijks toe bij: hydrocephalus en de nood voor shunting, oogbewegingsstoornissen en frequente hospitalisaties tijdens een gevoelige ontwikkelingsperiode (Dennis et al., 2001; UZ Leuven, 2016).

7.7.4 Geheugen

Spina bifida myelomeningocele kan gepaard gaan met een aantal geheugenproblemen doordat bepaalde geheugensystemen mogelijks niet optimaal functioneren. Systemen die eerder een associatieve werking vereisen, zoals het semantisch geheugen, zijn meestal intact

terwijl het werkgeheugen², prospectief³ en episodisch⁴ geheugen een disfunctionele werking kunnen hebben. Problemen met het episodisch geheugen leiden er bijvoorbeeld toe dat het onmiddellijk of uitgesteld herinneren van woorden niet vlot verloopt waardoor jongvolwassenen met spina bifida myelomeningocele lager scoren op desbetreffende testen in vergelijking met gezonde mensen (Treble-Barna et al., 2014). Treble-Barna et al. (2014) stelden vast dat een kleiner volume ter hoogte van de hippocampus geassocieerd was met een verminderd prospectief geheugen, maar geen verband werd gevonden met het episodisch geheugen. Bovenstaand verband was eerder verrassend voor de onderzoekers vermits de hippocampus geen centrale rol in het prospectief geheugen speelt. Vandaar stellen zij zich de vraag of bepaalde beperkingen van hun gebruikte meetinstrument, namelijk de RBMT-E, deze resultaten niet beïnvloed hebben. Waarom sommige mensen met spina bifida myelomeningocele een verminderd volume van de hippocampus hebben, is tot op heden nog onduidelijk. Echter wordt de hypothese geopperd dat het een effect is van hydrocephalus.

8. Psychosociaal

Spina bifida is een aandoening die een grote impact heeft op het lichaam. Daarnaast zijn er uiteraard ook belangrijke aandachtspunten op psychosociaal vlak. Het spreekt voor zich dat welbepaalde mentale en sociale problemen kunnen optreden vanwege de handicap waaraan deze kinderen lijden. In elke levensfase dienen zich namelijk ontwikkelingstaken aan die een uitdaging vormen voor sommigen gezien hun aandoening. Van Aalderen et al. (2010) maakten een beknopt overzicht van mogelijke strubbelingen gedurende de hele levensloop.

In de neonatale fase vormen vertrouwen en basisveiligheid een belangrijk aspect. Hiertoe is de band met de moeder heel belangrijk. Toch is dit niet evident bij een kind met spina bifida myelomeningocele. Ten eerste verblijft dit kind na de geboorte langer in het ziekenhuis in vergelijking met een normaal kind. Ten tweede vraagt deze vorm van spina bifida ook meer inzet, energie en zorg van ouders. Tot slot kunnen ouders zich schuldig voelen of schrikken zij soms terug van de verzorging van het kind. Deze emoties kunnen een effect hebben op het kind (Van Aalderen et al., 2010).

In de peuter- en kleuterjaren staat zelfstandigheid centraal. Kinderen streven naar

² Het werkgeheugen speelt een belangrijke rol bij concentratie, probleemoplossend denken, creativiteit,...

³ Prospective memory is the recall of intentions to be activated in the future (e.g., “remembering to remember”).

⁴ Episodic memory is a type of retrospective memory involving the acquisition, storage, and retrieval of information that refers to a specific context and is consciously and intentionally recollected.

autonoom handelen zonder hulp van de ouders. Opnieuw kan dit een obstakel vormen voor een kind met spina bifida myelomeningocele. Het kind blijft meer afhankelijk van de ouders omwille van de fysieke verzorging die het niet op eigen houtje kan uitvoeren. Daardoor worden zij geconfronteerd met tegenstrijdige behoeften. Dit kan innerlijke conflicten en conflicten met de verzorgende figuur teweegbrengen (Van Aalderen et al., 2010).

Een kind met spina bifida myelomeningocele waarbij het letsel lager ligt, kan mentale en sociale problemen ontwikkelen wanneer ouders hem/haar laten opgroeien tussen normale kinderen. Verschillende oorzaken kunnen hieraan ten grondslag liggen. Ten eerste kan het kind een achterstand kennen op vlak van motorische behendigheid in vergelijking met een normaal kind. Ten tweede valt dit kind in het regulier onderwijs meer op. Het toiletgebruik verloopt anders. Hulpmiddelen (rolstoel, spalken,...) zijn vaak aanwezig. Er is ook sprake van meer ziekteverzuim vanwege medische controles. Bovenstaande opsomming maakt een kind meer kwetsbaar voor spot en plagerij. Dit kan emotionele problemen tot gevolg hebben. Een kind met een ernstigere lichamelijke variant gaat doorgaans naar het bijzonder onderwijs. Hier valt het minder op omdat iedereen een welbepaalde afwijking heeft (Van Aalderen et al., 2010).

In de puberteit duikt opnieuw het probleem van autonomie op. De ontwikkelingstaak voor een adolescent ligt in het bereiken van meer zelfstandigheid. Voor patiënten met spina bifida vormt dit nog steeds een probleem omdat zij door de fysieke verzorging afhankelijk blijven van hun ouders. Dit kan zorgen voor conflicten met de omgeving. Ouders kunnen dit trachten te vermijden door de autonomie van hun kind te accepteren en te bevorderen in de mate van het mogelijke. Daarnaast kampen sommige pubers met spina bifida myelomeningocele met een laag zelfbeeld. Dit ontstaat deels door hun gestalte, maar vooral doordat zij zich op verschillende vlakken minder competent voelen, bijvoorbeeld op vlak van scholing. Pubers met spina bifida occulta kampen in vergelijking met spina bifida myelomeningocele met minder beperkingen. Zij kunnen echter ook beperkingen ervaren zoals pijn, moeheid,... Hierdoor kampen sommigen van hen met sociale problemen (Van Aalderen et al., 2010).

De adolescentie is tevens de periode waarin intieme relaties en seksualiteit op de voorgrond komen. In dit verband rapporteerden Van Aalderen et al. (2010) enkele interessante percentages, vastgesteld bij Nederlandse jongeren met spina bifida. Zij geven aan dat 68% belemmeringen ondervindt op vlak van het aangaan van intieme relaties en het hebben van seksueel contact door incontinentie. Gebrek aan zelfvertrouwen en

rolstoelafhankelijkheid behalen respectievelijk 52 en 27%.

In de volwassenheid tot slot kunnen er problemen optreden bij het vinden van een job.

9. Diagnostische marker en behandeling

Vermits spina bifida occulta gepaard gaat met weinig beperkingen ligt de focus hier vooral op de open vormen van spina bifida.

Wald, Brock, en Bonnar (1974) stelden al in 1974 vast dat een hogere waarde van het α -fetoproteïne in het bloed van de moeder geassocieerd was met open vormen van spina bifida en anencefalie (cfr. supra). Naarmate de zwangerschap vordert, wordt het verschil in hoeveelheid proteïne weliswaar kleiner in vergelijking met controle-zwangerschappen (Wald et al., 1974). De meting van de hoeveelheid α -fetoproteïne in het bloed van de moeder is nu een onderdeel van de triplettest (Van Rumst, 2009). Deze test is een vorm van kansberekening en geeft dus geen uitsluitsel betreffende een diagnose. Daarom is verder onderzoek nuttig indien het resultaat positief is.

Er is ook onderzoek gedaan naar de meest geschikte bevallingsmethode betreffende spina bifida: keizersnede of een vaginale bevalling. Geen evidentie werd gevonden voor de hypothese dat de uitkomst voor kinderen met spina bifida relatief beter zou zijn wanneer ze geboren worden via een keizersnede. Wel vormt deze laatste een goede optie wanneer er sprake is van een groot letsel. Op die manier wordt de kans op een trauma kleiner. Ook wanneer er sprake is van een prenatale chirurgische ingreep vormt een keizersnede de voorkeursbehandeling (Mitchell et al., 2004).

Wanneer een kind met een open vorm van spina bifida geboren wordt, is een meningocèle aanwezig ter hoogte van de rug. Op die manier kunnen er infecties of beschadigingen optreden. Daarom vindt er maximum 48u na de geboorte een operatie plaats door een neurochirurg (Mitchell et al., 2004). Hij dicht deze opening. In het geval dat de opening te groot blijkt en de beschikbare huid onvoldoende is om het volledig dicht te naaien, moet er beroep worden gedaan op een plastische chirurg.

In 2003 werd gestart met de 'Management of myelomeningocele study', afgekort MOMS. Hier werd bovenstaande postnatale chirurgische ingreep vergeleken met een prenatale chirurgische ingreep. Dit laatste kende een significant betere uitkomst. Zo bleek dat bij prenatale chirurgie 40% van de kinderen later een ventriculoperitoneale drain nodig heeft in vergelijking met 83% na postnatale chirurgie. Daarnaast was de motorische ontwikkeling van deze kinderen na 30 maanden ook beter in vergelijking met de postnatale groep. Toch is een prenatale ingreep niet zonder risico. Ten eerste verhoogt dit de kans op een

vroeggeboorte. In de prenatale groep betrof de tijdsduur van de zwangerschappen gemiddeld 34,1 weken in tegenstelling tot gemiddeld 37,3 weken in de postnatale groep. Ten tweede heeft de moeder een litteken in de baarmoederwand vanwege de ingreep. Hierdoor moeten eventueel volgende zwangerschappen steevast met een keizersnede gebeuren. Bovendien blijft dit een kwetsbare plek die kan openspringen bij een volgende zwangerschap. Dit houdt levensbedreigende risico's in voor de baby (Eggink, 2012).

Zoals reeds aangegeven is de levensverwachting voor kinderen met spina bifida gestegen. Ongeveer 78% wordt 17 jaar en ouder (Mitchell et al., 2004). Weliswaar blijven zij risico lopen op tal van medische problemen, zoals orthopedische abnormaliteiten, blaas- en darmproblemen,... Ook op neurologisch vlak zijn hydrocephalus en Chiari - II- malformatie frequente comorbiditeiten (cfr. supra) Bovendien ondervinden sommigen cognitieve disfuncties en taalmoelijkheden. Deze kunnen op hun beurt een invloed hebben op het educatief niveau en de mogelijkheid tot zelfstandig leven (Mitchell et al., 2004). Daarom vraagt de aandoening, spina bifida, om een multidisciplinair team. Hieronder worden enkele leden hiervan uitgelicht. Het team wil tegemoetkomen aan de noden van de patiënt en zijn familie via gecoördineerde zorg, maar ook steun en educatie bieden. Tevens moet ook de nodige assistentie verleend worden aan de belangrijkste zorgfiguur van het kind en aan de betrokken school (Burke, Liptak, & de Raad van Kinderen Met Beperkingen, 2011).

Tot dit multidisciplinair team behoren ten eerste neurochirurgen. Indien er sprake is van een postnatale chirurgische ingreep voor het sluiten van de lesie ter hoogte van de rug wordt dit door hen uitgevoerd. Hierna wordt op regelmatige basis door een arts een meting gedaan van de grootte van het hoofd. Op die manier wordt het gevaar op hydrocephalus (cfr. supra) gemonitord. Indien nodig wordt er een shunt geplaatst (Burke et al., 2011).

Ten tweede is er nood aan een uroloog. In het begin kan er via een sonogram gekeken worden of er reeds aangeboren afwijkingen aanwezig zijn in de blaas of nieren. Urine-incontinentie is een ander probleem dat kan optreden. Dit wordt dan al reeds in de kindertijd behandeld via het plaatsen van een katheter. Het is een dun buisje dat in het lichaam wordt geplaatst om op die manier urine vanuit de blaas naar buiten te draineren. Complicaties kunnen optreden zoals urineweginfecties. Katherisatie wordt meestal in de eerste 8-9 levensjaren gedaan door primaire zorgfiguren. Op termijn is het de bedoeling dat de patiënt dit zelfstandig kan (De Ruyk et al., 2014). Tevens kan een colonspoeling aangeleerd worden in geval van darm-constipatie. Dit houdt in dat de dikke darm wordt geledigd door toevoeging van water in de darm via een buisje in de anus.

Orthopedische problemen zoals klompvoet, knie instabiliteit en dislocatie van de heup

kunnen al vanaf de geboorte vastgesteld worden. Daarom is er ten derde nood aan orthopedisten om zo de mate van functioneren te maximaliseren. Ook botfracturen worden door hen behandeld. Dit komt vaak voor bij spina bifida myelomeningocele. Men moet ook zeer alert zijn om fracturen in gevoelloze ledematen op te merken. Het kind ervaart hiervan namelijk geen pijn, maar toch kan je de breuk herkennen via roodheid en zwelling (Burke et al., 2011). Tot slot komt scoliose vaak voor bij kinderen met een letsel hoger dan de tweede lendenwervel. Dit is een uitbochting van de wervelkolom. Afhankelijk van de grootte van het letsel komt een orthopedagoog of orthopedisch chirurg tussen. Er zijn ook verschillende hulpmiddelen op de markt om op motorisch vlak een vooruitgang te verkrijgen: aangepaste schoenen, een looprek, spalken of een rolstoel.

Ook ergotherapeuten spelen een belangrijke rol in de zorg van een kind met spina bifida. Hun takenpakket bestaat uit verschillende zaken en heeft tot doel het kind meer zelfstandigheid te laten bereiken op vlak van activiteiten tijdens het dagelijks leven. Eerst en vooral wordt er aandacht besteed aan het verbeteren van de motorische vaardigheden. Dit is enerzijds belangrijk voor aspecten zoals lopen of staan, maar aan de andere kant ook voor het rolstoelgebruik. Ten tweede probeert men het kind ook zo comfortabel en flexibel mogelijk te laten bewegen in moeilijkere ruimtes zoals een wc- of doucheruimte. Daarnaast is de focus ook gericht op het aanleren van een speciale handigheid die zij nodig hebben tijdens de uitvoering van dagelijkse activiteiten. Tot slot maakt ook educatie deel uit van het pakket. Zo kan een ergotherapeut advies geven over technische voorzieningen thuis of hulpmiddelen (Broere et al., 1983).

Psychologen kunnen indien nodig ingeschakeld worden. Zij ogen een optimale inschatting te maken van eventueel aanwezige cognitieve en emotionele problemen. Indien aanwezigheid blijkt, kunnen zij psychologische ondersteuning bieden aan de patiënt, maar tevens ook aan andere betrokkenen (ouders, broers, zussen,...) die er eventueel nood aan zouden hebben.

Naast de reeds benoemde hulpverleners spelen ook andere beroepen een belangrijke rol. Er bestaat namelijk ook de mogelijkheid om beroep te doen op een kinesist. Hij staat in voor de lichamelijke klachten rond het steun- en bewegingsapparaat. Ook kan er nood zijn aan advies van een sociaal werker of diëtist. Deze laatste kan bijvoorbeeld informatie geven over voedingspatronen aan rolstoelgebonden mensen met spina bifida en hun gewicht verder opvolgen.

10. De aanzet tot deze studie

Door bovenstaande informatie is hopelijk duidelijk geworden dat spina bifida een zeer ernstige aandoening is. Dit exploratief onderzoek werd opgesteld met als doel meer duidelijkheid te scheppen over de precieze impact van spina bifida op het dagelijks leven. Een vragenlijst werd hiertoe opgesteld en peilt naar verschillende levensdomeinen voor volwassenen enerzijds en kinderen en adolescenten anderzijds. Daarnaast zijn er ook quality of life vragenlijsten opgenomen daar dit tevens een (psychologisch) relevant thema is en past binnen het kader van dit thesisonderwerp.

Op deze manier kunnen we beter de impact op het dagdagelijkse leven inschatten. Wanneer de kennis hierover verbetert, is het ook mogelijk om de hulpverlening te optimaliseren. Dit onderzoek zou dus een nuttige bijdrage kunnen leveren aan de klinische wereld omtrent spina bifida.

DEEL 2: LITERATUURSTUDIE

1. Inleiding

Aangezien de prevalentie voor spina bifida in België tussen 1991 en 2011 toch 1-4 op 10 000 geboortes bedroeg (Hoppenbrouwers et al., 2010), is het nagaan van de impact van deze aandoening op het dagelijks leven een belangrijk thema. Daarnaast kunnen deze wetenschappelijke bevindingen ook leiden tot een verdere optimalisatie van de hulpverlening. Bovendien kunnen er op grond van dergelijk onderzoek mogelijks ook (preventieve) maatregelen genomen worden om in de toekomst de impact van spina bifida te verkleinen. Onderzoek naar dit onderwerp vormt met andere woorden zowel een nuttige wetenschappelijke bijdrage, alsook is het klinisch en maatschappelijk zeer relevant.

Zoals reeds vermeld in de inleiding, kan de aandoening een aantal gevolgen hebben. Er kunnen zich bijvoorbeeld darm- en blaasproblemen ontwikkelen en er kan ook hydrocephalus optreden, waardoor een shunt geplaatst moet worden. Tot slot kunnen sommige patiënten, afhankelijk van het specifieke type van spina bifida, rolstoelgebonden zijn vanwege een verlamming aan beide benen,

Om de effecten van deze aandoening en de bijhorende gevolgen op het dagdagelijks leven in kaart te brengen, werd een uitgebreide literatuurstudie gedaan. Vooreerst zal de zoekstrategie worden besproken die geleid heeft tot de uiteindelijk geïncludeerde artikels. Daarna worden de resultaten per levensdomein beschreven.

2. Doel van het onderzoek

Het eerste deel van het onderzoek was erop gericht een overzicht te bieden van de beschikbare literatuur inzake de impact van spina bifida op het dagelijks leven. Het voeren van een empirisch onderzoek om deze impact gedetailleerd in kaart te brengen, zowel bij volwassenen, als bij adolescenten en kinderen, vormde de tweede doelstelling.

2.1 Probleemstelling

Er wordt verwacht dat spina bifida, als neuraalbuisdefect, een invloed heeft op het dagdagelijks leven van de patiënt. Deze verwachting leidt tot de algemene vraagstelling van deze masterproef: “Heeft spina bifida een impact op het dagdagelijks leven van volwassenen, adolescenten en kinderen met spina bifida?”. De hypothese die naar aanleiding van deze probleemstelling geformuleerd wordt, luidt bijgevolg als volgt: “Lijden aan spina bifida heeft een invloed op het dagelijks leven, zowel bij volwassenen als bij adolescenten en kinderen”.

2.2 Onderzoeksvragen

Zoals reeds eerder vermeld, werd een literatuurstudie en een empirisch onderzoek gedaan om de correctheid van bovenstaande probleemstelling na te gaan. Vanwege de praktische haalbaarheid van deze thesis en de uitgebreidheid van het onderzoeksonderwerp werden een aantal levensdomeinen gekozen op basis van een aantal wetenschappelijke artikels. Zowel het empirisch onderzoek als de literatuurstudie brengen deze levensdomeinen specifieker in kaart. Op die manier komen verschillende vraagstellingen naar voren:

- Wat is de impact van spina bifida op professioneel gebied bij volwassenen?
- Wat is de impact van spina bifida op het schools functioneren voor zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?
- Wat is de impact van spina bifida op het sociaal functioneren van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?
- Wat is de impact van spina bifida op de mobiliteit van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?
- Wat is de impact van spina bifida op de zelfstandigheid van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?
- Wat is de impact van spina bifida op de woonstatus van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?
- Wat is de impact van spina bifida op de vrijetijdsbesteding en sportparticipatie van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?

Ook het domein van de levenskwaliteit werd opgenomen, daar het een psychologisch relevant thema is en perfect past binnen dit thesisonderwerp. Die inclusie leidt tot onderstaande bijkomende vraagstelling:

Wat is de impact van spina bifida op de levenskwaliteit van zowel volwassenen als kinderen en adolescenten?⁵

⁵ Deze levensdomeinen worden zowel in de literatuurstudie als in het empirisch onderzoek zeer ruim besproken. Daarom werden er geen specifiekere hypothesen opgesteld per levensdomein.

3. Methodologie

3.1 Zoekstrategie

Voor het vinden van geschikte literatuur werd op voorhand een zoekstrategie uitgewerkt. Er werd beslist een digitale zoekopdracht in Pubmed uit te voeren. Limo werd bijgevolg enkel gebruikt indien de toegang tot een artikel op Pubmed niet mogelijk was. Er werden systematisch negen zoektermen ingegeven. Het eerste gedeelte van elke zoekterm betrof ‘spina bifida’. Er werd bewust gekozen voor deze paraplu-term (en dus niet voor een specificatie naar een bepaalde subcategorie), vermits binnen de UZ Leuven-conventie alle verschillende types van spina bifida vertegenwoordigd zijn.

Het tweede gedeelte van de zoekterm betrof ‘work’, ‘school’, ‘leisure activities’, ‘housing’, ‘quality of life’, ‘social functioning’, ‘relationships’, ‘mobility’ of ‘independence’. Omwille van praktische redenen was het niet mogelijk om eerst een literatuurstudie te doen, alvorens te starten met het opstellen van een vragenlijst. Daarom gebeurde dit voor deze masterproef in de omgekeerde richting. Bovenstaande termen werden uiteindelijk weliswaar weloverwogen gekozen, daar elke term refereert naar een levensdomein dat werd opgenomen in de zelfgeconstrueerde vragenlijst. Om een groot aantal hits te bekomen, werden MeSH-termen ingegeven, zoals ‘relationships’, in plaats van het meer specifieke ‘intimate relationship’, ‘family relationships’ en ‘relationships with friends’.

Na het verkrijgen van het aantal hits per zoekterm, werd elk artikel gescreend op onderstaande inclusiecriteria. Indien een artikel niet voldeed aan een van de zeven criteria, werd het geschrapt. In een eerste fase werd gescreend op titel en abstract en daarna op basis van full tekst⁶.

3.2 Selectiecriteria

Er werden in totaal zeven selectiecriteria gehanteerd.

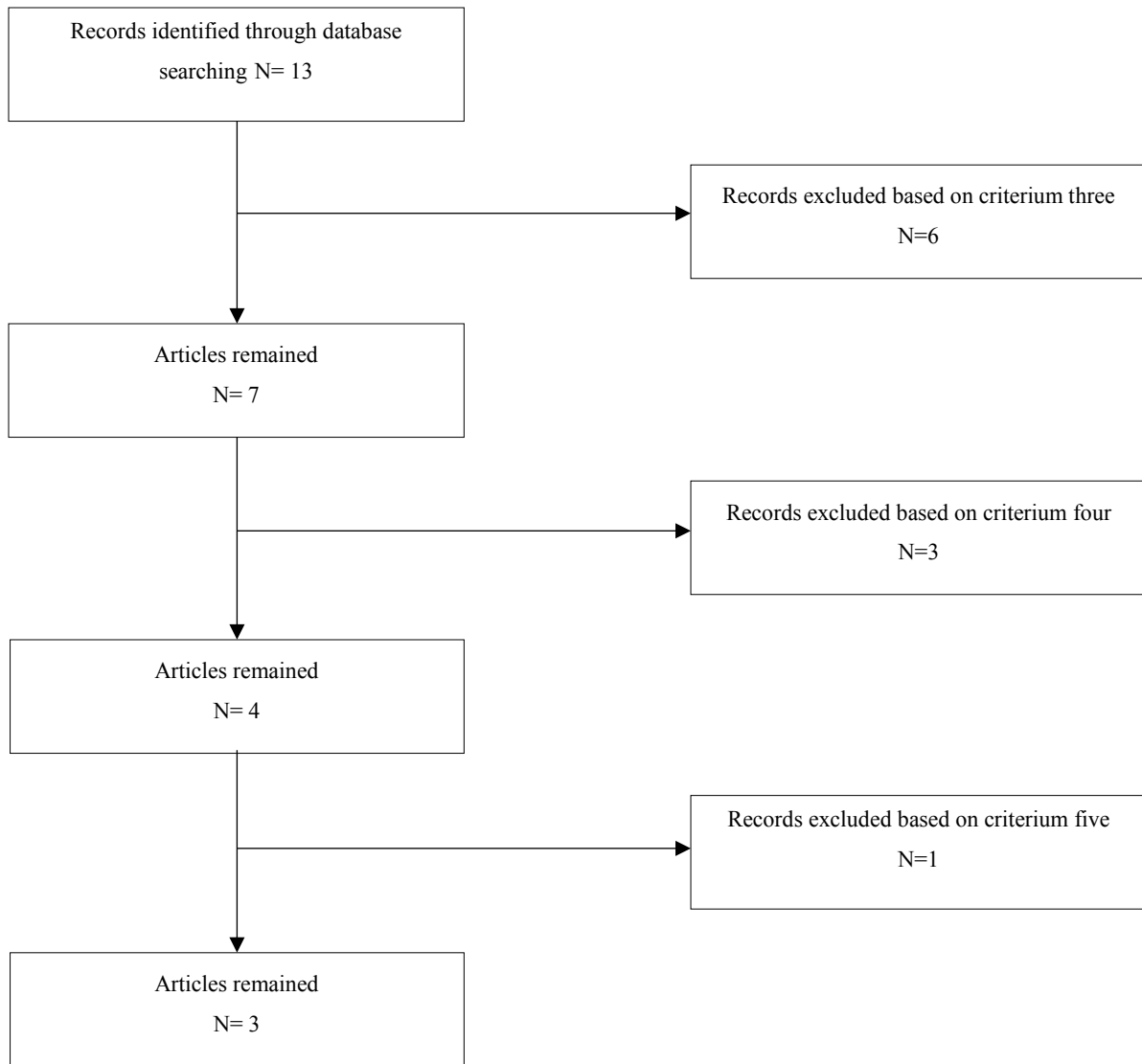
- Ten eerste moesten alle geïncludeerde artikels peer-reviewed zijn, maar gezien deze zoekstrategie werd uitgevoerd via Pubmed werd er aan dit criterium voldaan.
- Ten tweede moest het artikel geschreven zijn in het Nederlands of Engels. Andere schrijftalen werden niet geïncludeerd.

⁶ Uiteindelijk werd van deze strategie afgeweken omdat een te groot aantal artikels bekomen werd na de eerste fase. Deze nieuwe strategie wordt verder toegelicht bij ‘4. Data extractie’.

- Het derde en erg belangrijke criterium betrof het onderwerp van de studie. Dit moest sterk gerelateerd zijn aan het benoemde levensdomein in de zoekterm. Irrelevante onderwerpen voor een bepaald levensdomein werden dus geëxcludeerd.
- Ten vierde dienden alle participanten binnen het onderzoek uitsluitend te lijden aan een vorm van spina bifida. Dit betekent dat studies die verschillende patiëntenpopulaties includeerden en/of vergeleken, niet werden opgenomen. Ook mocht er geen sprake zijn van comorbiditeiten. Weliswaar werd de combinatie spina bifida in aanwezigheid van een hydrocephalus wel toegelaten, vermits dit laatste een vaak voorkomend gevolg van de aandoening is.
- De metingen op zich moesten ook telkens betrekking hebben op de patiënten met spina bifida. Onderzoeken die betrekking hadden op andere naasten (partner, ouders, broers, zussen of vrienden) van kinderen of volwassenen met spina bifida werden dan ook buiten beschouwing gelaten.
- Een zesde criterium betrof de aard van het onderzoek. Kwantitatieve en kwalitatieve studies, case-reports en reviewartikels werden opgenomen, in tegenstelling tot expert opinions.
- Tot slot werd gespecificeerd dat de participanten geen dieren mochten zijn. Onderzoek waarin gebruik gemaakt werd van een muismodel voor spina bifida werd bijgevolg niet opgenomen.

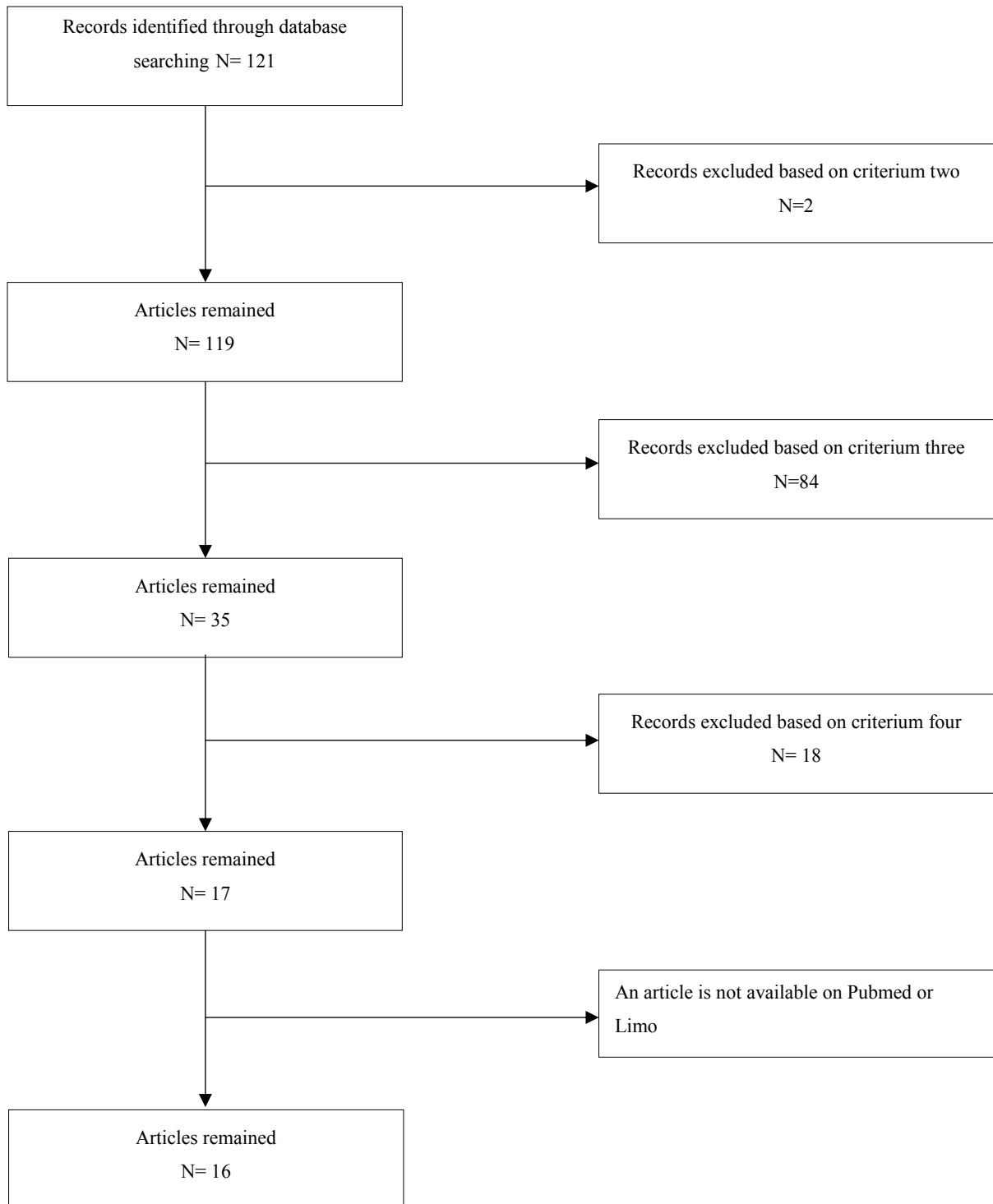
4. Data extractie

De zoekterm ‘spina bifida and housing’ leverde 13 hits op. Aan criteria één en twee werden voldaan. Na exclusie op basis van criterium drie, bleven er zeven artikels over. Dit kon verminderd worden naar vier, aangezien drie studies niet voldeden aan criterium vier. Nog één artikel viel af, omdat deze studie betrekking had op de ouders in plaats van op de kinderen met spina bifida zelf. Uiteindelijk voldeden dus drie artikels aan alle criteria. Figuur 1 schetst bovenstaand proces aan de hand van een flowchart.



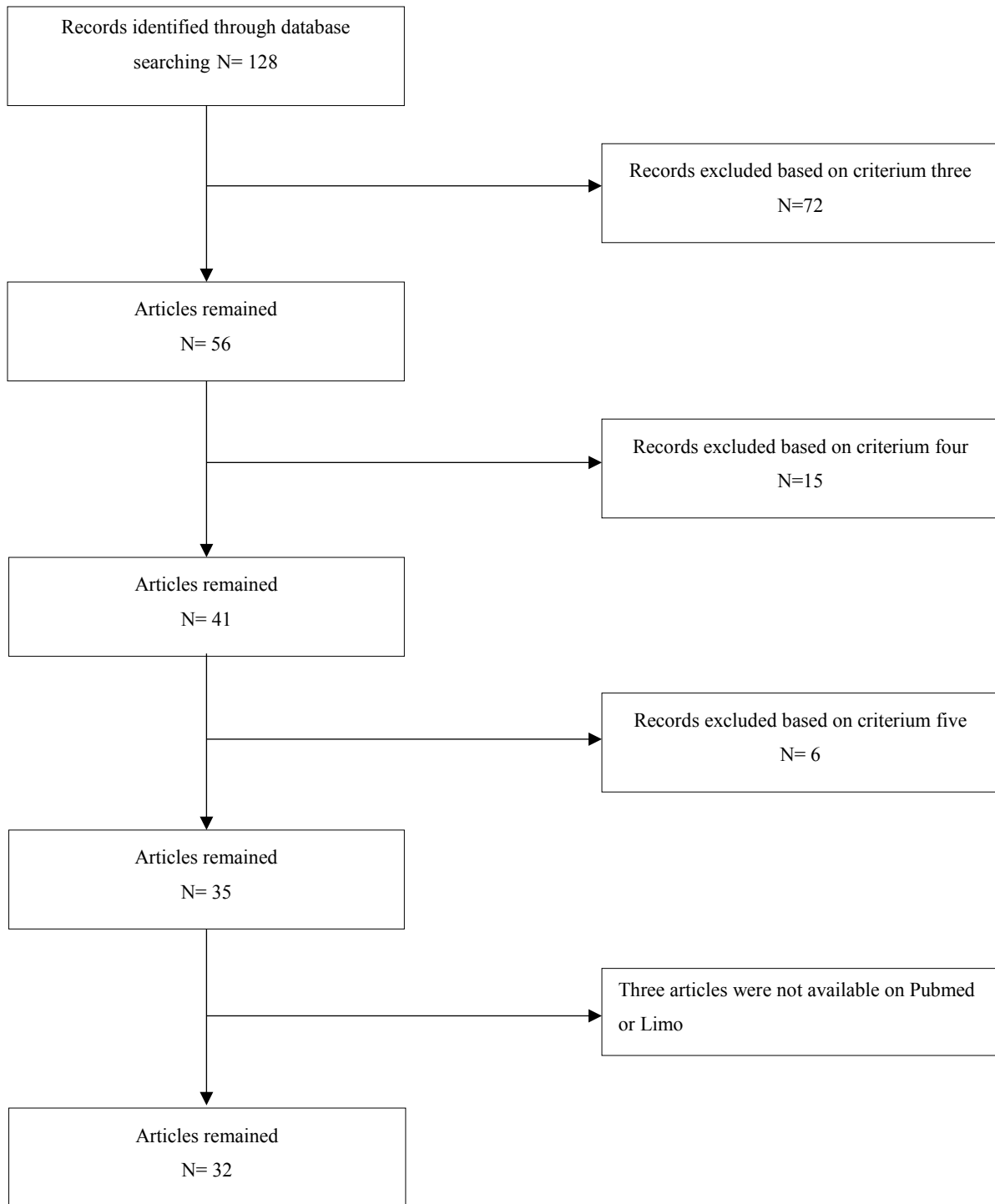
Figuur 1. Flowchart voor zoekterm, 'spina bifida and housing'

Voor de zoekterm 'spina bifida and leisure activities' werden 121 hits gevonden. Allen voldeden aan criterium één. Twee artikels werden weggelaten omdat ze niet in het Nederlands of Engels geschreven waren. Er werden 84 artikels weggelaten wegens criterium drie. Van de overige 35 artikels voldeden slechts 17 artikels aan criterium vier. Er was ook één artikel dat niet beschikbaar was op Pubmed of Limo. Zodoende was enkel de titel voorhanden en hieruit kon moeilijk worden afgeleid of dit artikel een bijdrage kon leveren aan de literatuurstudie. Aldus werd het uiteindelijk weggelaten, waardoor er uiteindelijk 16 artikels geselecteerd konden worden. Een flowchart van dit tweede levensdomein wordt getoond in Figuur 2.



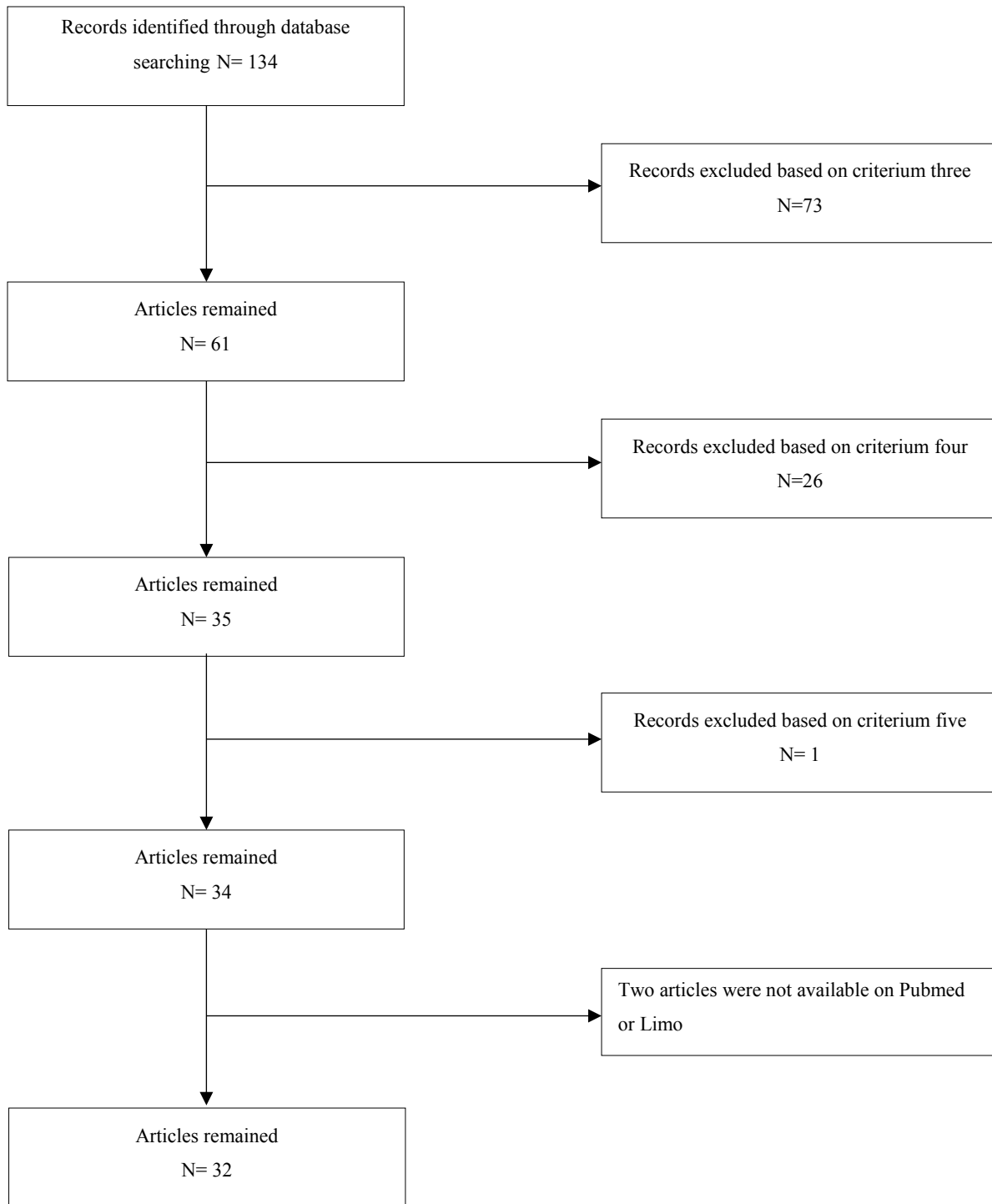
Figuur 2. Flowchart voor zoekterm, ‘spina bifida and leisure activities’

Het aantal hits bij de term 'spina bifida and relationships' bedroeg 128. Allen waren peer-reviewed. De artikels werden daarna op schrijftaal gecontroleerd, maar er stelden zich hieromtrent geen problemen. Op basis van criterium drie werden 72 artikels geëxcludeerd. Hierna werden bijkomend 15 artikels geschrapt op basis van criterium vier. Weliswaar werden zes artikels verwijderd, omdat ze geen betrekking hadden op de patiënten met spina bifida zelf. Deze onderzoeken draaiden immers rond een specifiek aspect bij ouders, broers, zussen of vrienden van kinderen met spina bifida. Tot slot waren drie artikels niet toegankelijk op Pubmed of Limo. Aldus werden ook deze niet weerhouden. In totaal werden er zo 32 artikels geselecteerd. Figuur 3 stelt het bijhorend flowchart voor.



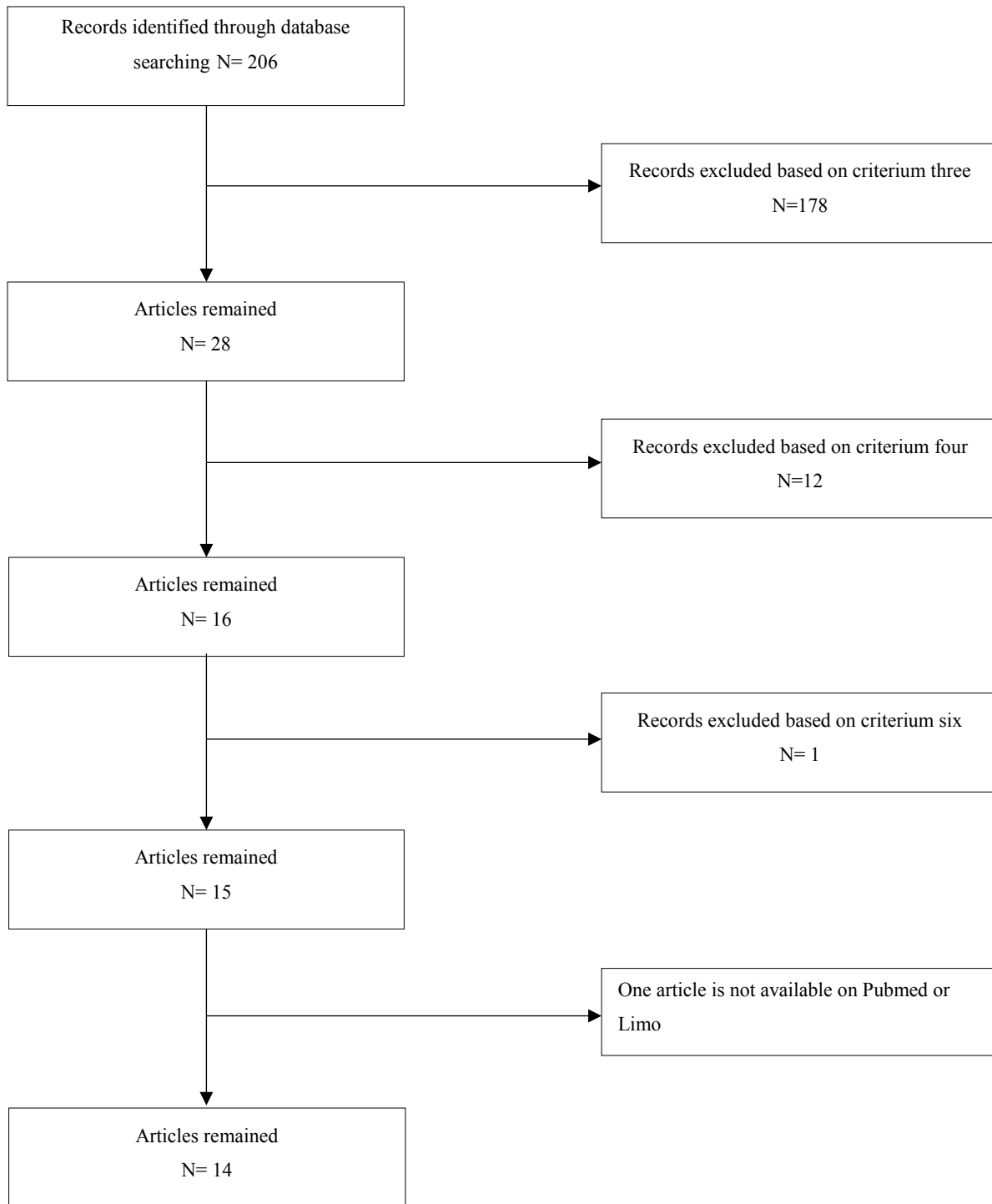
Figuur 3. Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and relationships’

Bij gebruik van de term 'spina bifida and independence, werden 134 hits gevonden. Hiervan werden er 73 geschrapt, omdat ze niet relevant waren voor bovenstaand levensdomein. Hierdoor bleven er 61 artikels over. Op grond van criterium vier werden vervolgens 26 artikels verwijderd, wat het totaal herleidde naar 35. Eén artikel werd geschrapt op basis van criterium vijf en tot slot waren er twee artikels niet beschikbaar in beide databanken. Uiteindelijk voldeden dus 32 artikels aan alle zeven criteria. Het bijhorend flowchart wordt weergegeven in Figuur 4.



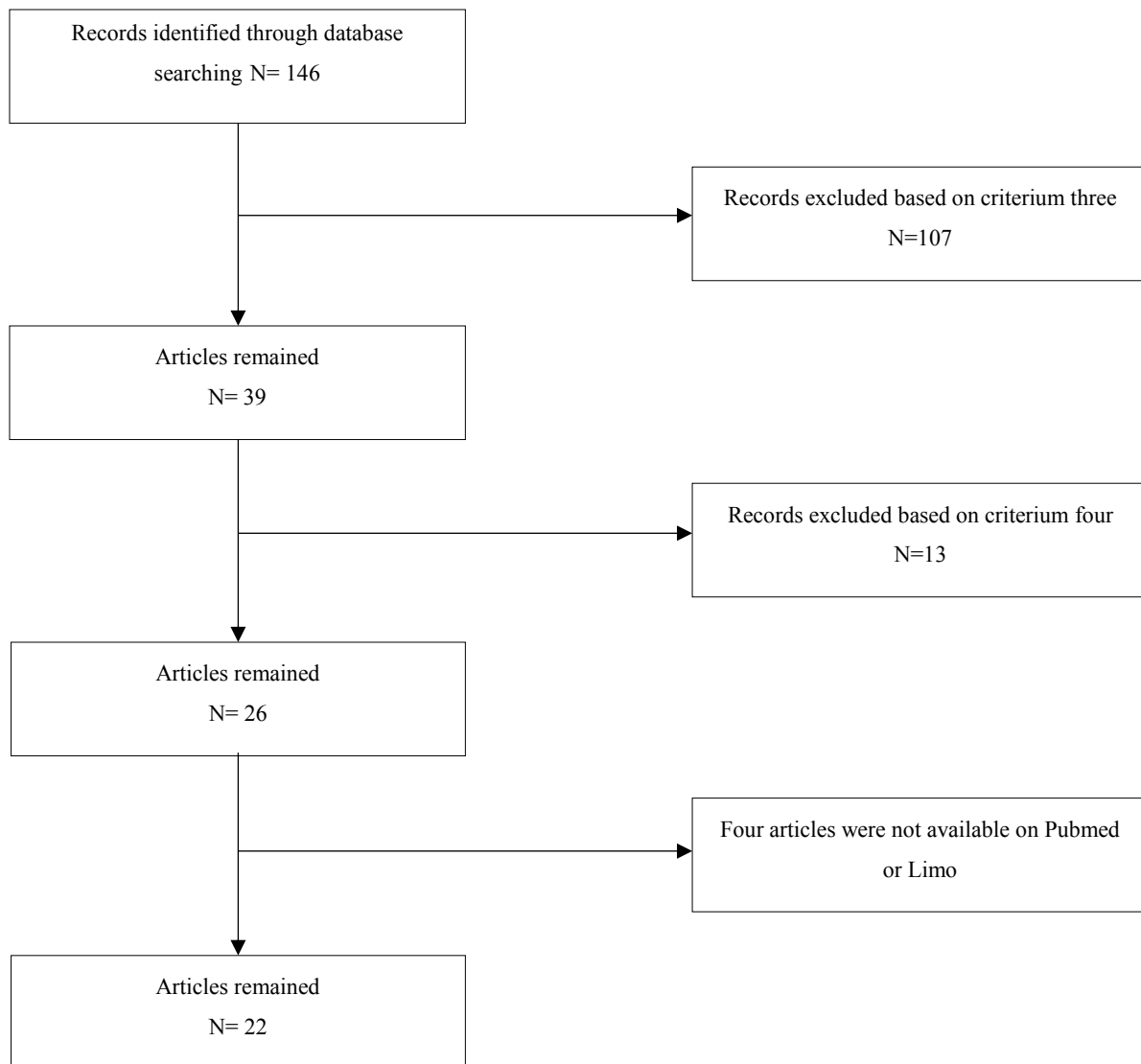
Figuur 4. Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and independence’

De combinatie ‘spina bifida and work’ leverde 206 hits op. Op basis van criteria één en twee stelden zich geen problemen, maar 178 artikels moesten uiteindelijk geschrapt worden, omdat ze geen relevant verband hielden met het levensdomein werk. Hierdoor bleven er nog maar 28 artikels over. In 12 van de resterende artikels werd niet enkel spina bifida bekeken, maar werden ook de effecten nagegaan bij andere patiëntenpopulaties. Daarom werden deze niet opgenomen in de huidige literatuurstudie. Alle resterende artikels voldeden aan criterium vijf, maar één artikel werd nog verwijderd op basis van criterium zes. Hierdoor bleven uiteindelijk 15 artikels over waarvan nog één geschrapt moest worden omdat het niet beschikbaar was op Pubmed of Limo. Figuur 5 geeft bovenstaand proces weer via een flowchart.



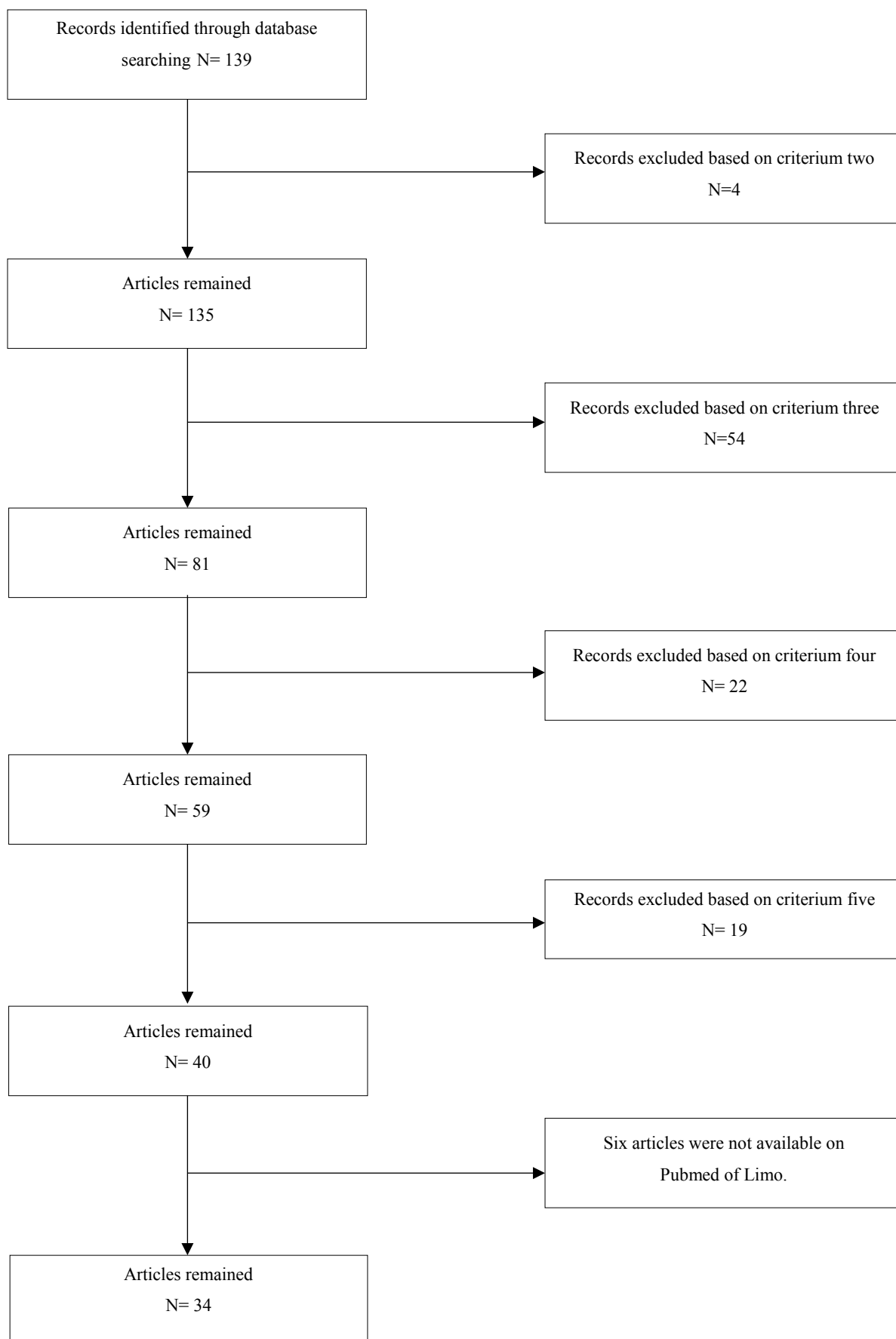
Figuur 5. Flowchart voor zoekterm ‘spina bifida and work’

De term 'spina bifida and mobility' leverde 146 hits op. Allen voldeden aan criteria één en twee. Er werden 107 artikels geschrapt, omdat ze een irrelevant verband hielden met het domein mobiliteit. Aldus bleven er 39 artikels over. Dertien artikels voldeden niet aan criterium vier, waardoor ook zij werden weggelaten. Van de overige 26 artikels werden er vervolgens vier weggelaten, omdat ze niet beschikbaar waren op Limo of Pubmed. Hierdoor strandden we op een totaal van 22 geïncludeerde artikels. In Figuur 6 wordt bovenstaande traject weergegeven aan de hand van een flowchart.



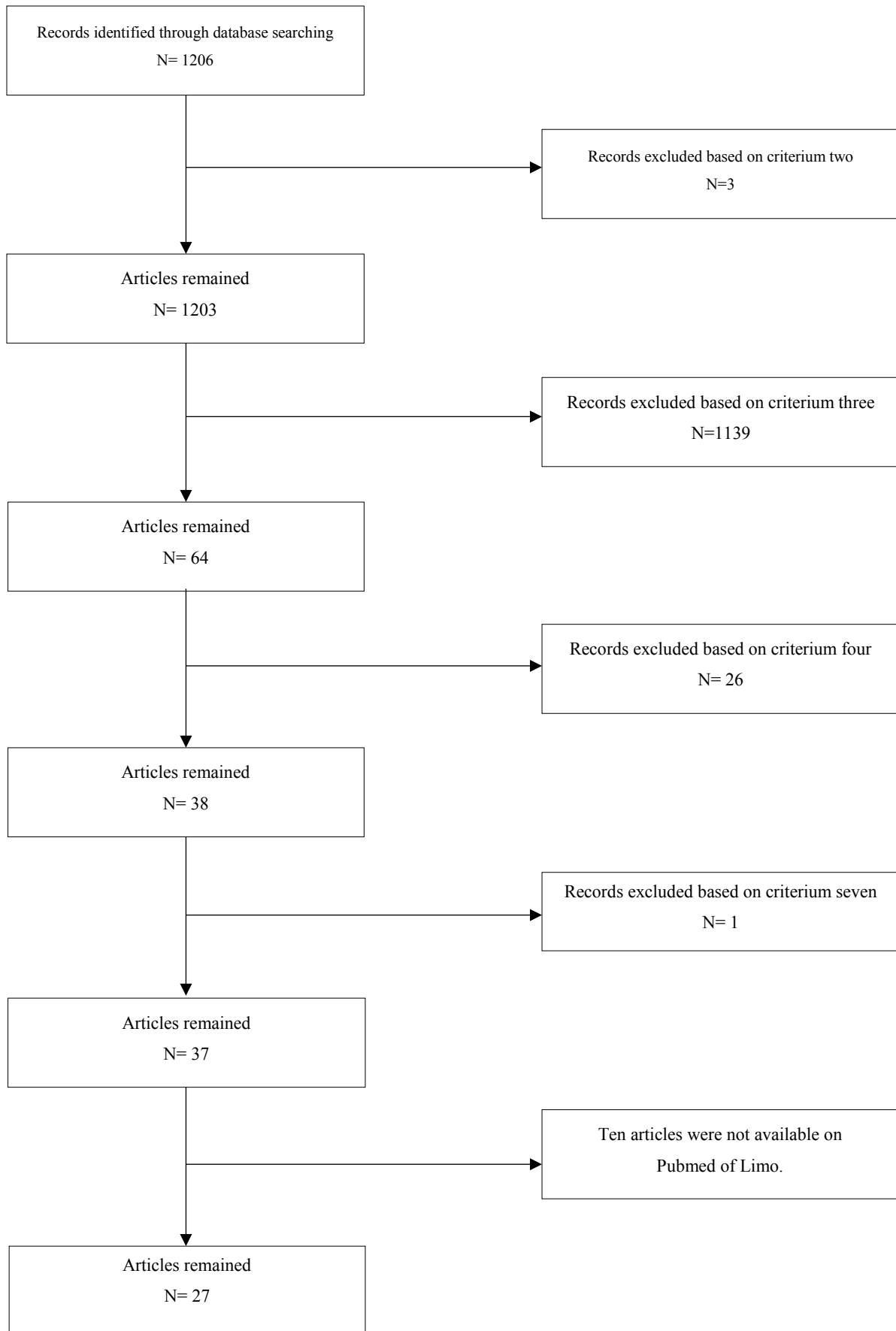
Figuur 6. Flowchart voor de zoekterm 'spina bifida and mobility'

Het aantal hits bij de zoekterm 'spina bifida and social functioning' bedroeg 139. De schrijftaal vormde een probleem bij vier artikels. Ten tweede konden er 54 artikels verwijderd worden op basis van criterium drie. De overige artikels werden vervolgens gescreend via criterium vier, waardoor 22 artikels geëxcludeerd konden worden. Van de overige 59 artikels werden er nogmaals 19 niet meegenomen omwille van het feit dat de metingen betrekking hadden op de naaste familie of vrienden van kinderen met spina bifida in plaats van op deze laatsten zelf. Tot slot waren zes artikels niet beschikbaar op Limo of Pubmed, wat het eindresultaat op 34 bracht. Het bijhorend flowchart wordt weergegeven in Figuur 7.



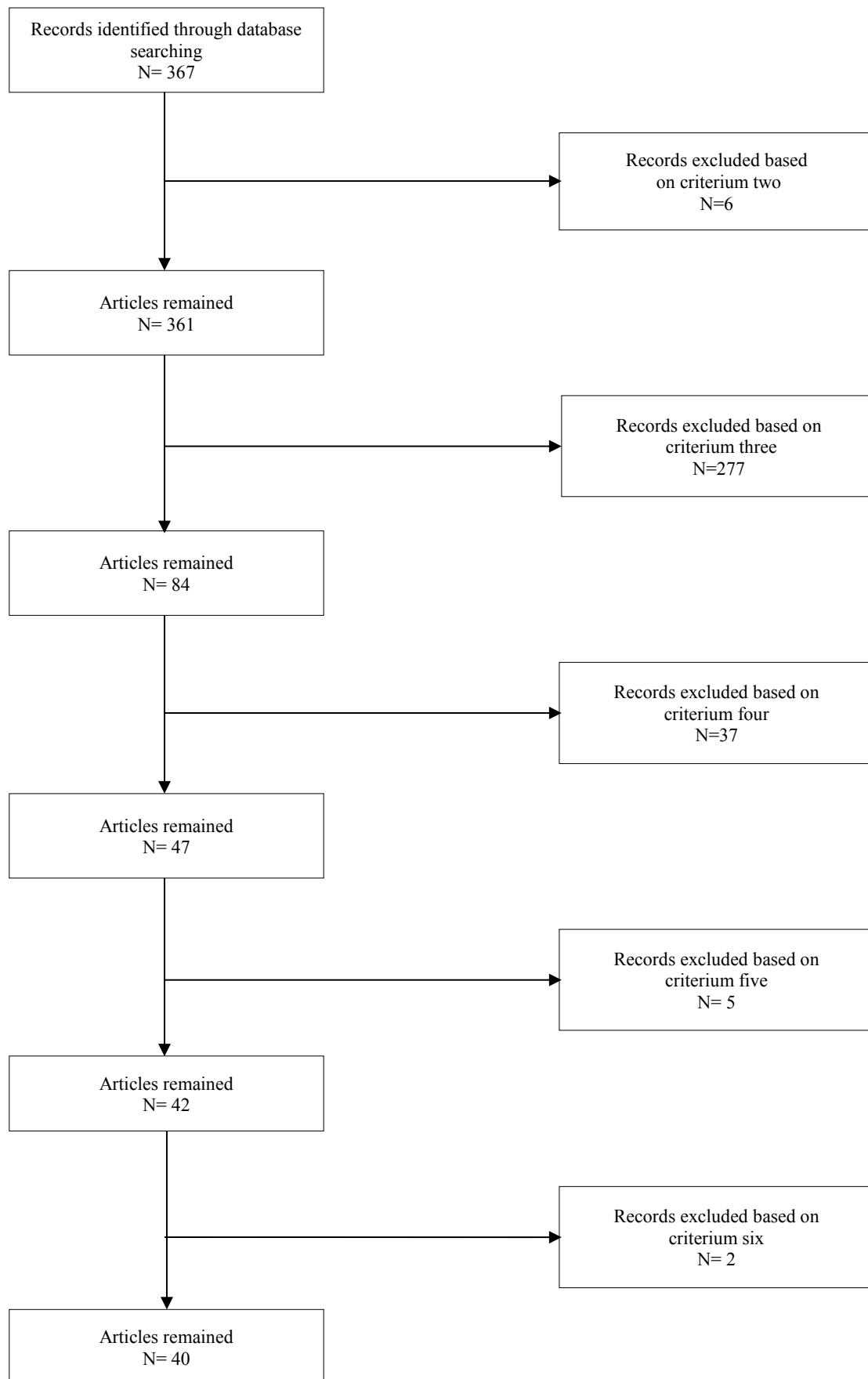
Figuur 7. Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and social functioning’

Er werden 1206 hits bekomen met 'spina bifida and school'. Op vlak van schrijftaal werden drie artikels geëxcludeerd. Een groot aantal artikels, 1139 in totaal, waren irrelevant (criterium drie) en werden daarom weggelaten. Er waren vervolgens 26 artikels die niet voldeden aan criterium vier. Weliswaar moest hierna nog één artikel verwijderd worden door criterium zeven. Tot slot waren tien artikels niet beschikbaar in de twee databanken. Hierdoor werd het totaal gereduceerd tot 27. Figuur 8 betreft het bijhorend flowchart.



Figuur 8. Flowchart voor de zoekterm ‘spina bifida and school’

Tot slot gaf de laatste zoekterm 'spina bifida and quality of life' 367 hits. Zes artikels voldeden niet aan criterium twee. Uiteindelijk werden 277 artikels niet opgenomen, omdat ze irrelevant waren (criterium drie). Hierna werden er 37 weggelaten, omdat ze niet voldeden aan criterium 4. Dit zorgde ervoor dat er 47 artikels overbleven. Vijf artikels hadden betrekking op de naasten van kinderen met spina bifida dus ook zij werden verwijderd. Van de overige 42 artikels voldeden twee artikels niet aan criterium zes. Dit flowchart wordt weergegeven in Figuur 9.



Figuur 9. Flowchart voor de zoekterm 'spina bifida and quality of life'

In totaal werden er via deze eerste zoekstrategie, op titel en abstract, 220 artikels behouden. Vervolgens konden 24 artikels, die dubbel in de lijst stonden, geschrapt worden. Dit bracht het totaal aantal artikels op 196, wat een te hoog aantal bleek voor een onderzoek uitgevoerd in het kader van een masterproef. Aldus werd een nieuwe zoekmethode toegepast, waarbij op zoek werd gegaan naar geïncorporeerde reviewartikels. Deze reviewartikels bleven zelf behouden in de lijst, maar indien er een match werd gevonden tussen een item uit de literatuurlijst van dergelijk reviewartikel met een geïncorporeerd artikel uit de hoger beschreven zoekmethode, werd het desbetreffende artikel geschrapt. Op basis van de 5 reviewartikels konden er uiteindelijk 42 artikels geschrapt worden. Er restten dus nog 154 artikels.

Hierna werd nogmaals een screening uitgevoerd op basis van het abstract, waarbij kritischer werd gekeken naar criterium drie. Tijdens de eerste screening werd bewust zeer breed gekeken om voldoende artikels te behouden, maar gelet op het hoge aantal werd de focus dit keer vernauwd. Tabel 1 geeft een overzicht van deze screening.

Tabel 1

Derde Screening opnieuw op basis van Abstract (Criterium drie)

Levensdomein	Resterend aantal artikels, na eerste en tweede screening	Het aantal geschrapte artikels na derde screening (criterium drie)	Het aantal behouden artikels
Housing	3	1	2
Leisure activities	16	12	4 (waaronder één reviewartikel)
Relationships	22	12	10 (waaronder twee reviewartikels)
Independence	26	20	6
Work	6	3	3
Mobility	18	10	8
Social functioning	22	15	7
School	21	16	5
Quality of life	20	8	12 (waaronder twee reviewartikels)

Na deze derde screening werd het aantal artikels gereduceerd tot 57. Hierna was het de bedoeling om de full-text door te nemen, maar 17⁷ artikels bleken niet beschikbaar te zijn via Pubmed of Limo, wat het totaal aantal verder reduceerde tot 40. De screening op full-text reduceerde dit tot slot naar 39, aangezien één artikel een duplicaat was.

Bijkomend werden nog 12 artikels (11 van het domein ‘leisure activities’ en 1 van het domein ‘work’) gelezen uit zuivere interesse. Onderstaande literatuurstudie is aldus gebaseerd op 51 artikels.

⁷ Deze hoeveelheid is vrij groot. Er werden uiteindelijk geen andere pogingen ondernomen om deze artikels toch te bemachtigen vermits het aantal behouden artikels na de derde screening nog steeds te omvangrijk was.

5. Resultaten

5.1 Huisvesting

Zelfstandig wonen houdt in dat mensen zonder supervisie wonen en dagdagelijkse dingen, zoals huishouden, transport, enzovoort, ook volledig zelf managen. Zowel in Amerika als in Engeland woont 30 tot 40% van de volwassenen met spina bifida op die manier zelfstandig (Bellin et al., 2012; Lindsay, McPherson, & Maxwell, 2016; Roach, Short, & Saltzman, 2010; Wagner et al., 2015)⁸. De overige 60 tot 70% woont in een voorziening of bij zijn/haar ouders. Bij adolescenten ligt dit laatste percentage logischerwijs hoger, met 93% (Johnson, Dudgeon, Kuehn, & Walker, 2007) (N = 348). Ook Australisch onderzoek door Kalucy, Bower, en Stanley (1996) toonde aan dat alle 72 participanten met een leeftijdsbereik van 5-18j bij hun ouders inwoonden.

Een studie in Engeland (Hunt, Oakeshott, & Kerry, 1999) (N = 57) kon aantonen dat herzieningen van de shunt een predictor vormen voor het al dan niet bereiken van een aantal doelstellingen, waaronder zelfstandig wonen. Indien de shunt niet verbeterd moet worden, bleek de kans immers groter dat een of meerdere van deze doelstellingen worden bereikt. Bij de participanten waar de shunt nog nooit moest herzien worden, woonden bijvoorbeeld 50% zelfstandig. Dit aantal bedroeg slechts 15,63% indien de shunt wel al herzien moest worden.

Tot slot werd in een Amerikaanse studie (Lindsay et al., 2016) (N = 44) duidelijk dat vooral jongeren met spina bifida vaak te kampen hebben met frustraties door een gebrek aan informatie over huisvesting. Ouders en jongeren maken zich bijvoorbeeld zorgen omtrent het vinden van een geschikte woning na het afronden van het secundair onderwijs. Zo getuigde een jongeman die universitaire studies had aangevat, dat het enkele jaren had geduurd vooraleer hij een aangepaste woning had gevonden.

5.2 Professionele loopbaan

Het uitoefenen van een job is een belangrijke en zinvolle activiteit, daar een professioneel actief leven niet enkel zorgt voor een inkomen en het ontwikkelen van sociale relaties, maar ook voor een gevoel van maatschappelijke relevantie (Lindsay et al., 2016). Over het algemeen zijn adolescenten en jongvolwassenen met spina bifida minder tewerkgesteld dan gezonde leeftijdsgenoten. Het percentage schommelt tussen 29 en 41% (Dorner, 1976; Holmbeck & Devine, 2010; Johnson et al., 2007; Lindsay et al., 2016)⁹. Bellin

⁸ Respectievelijk: N = 44; N = 84; N = 61 & N = 72

⁹ Respectievelijk: N = 44 ; N = 46 & N = 348. Het laatste is een reviewartikel.

et al. (2012) (N = 48) stelden vast dat 45,8% van de door hen bevroegde jongvolwassenen met spina bifida werkten, maar 35,4% was tewerkgesteld in een parttime job en amper 10,4% werkte fulltime. Bovendien hadden zij allemaal een eerder lage functie. Een Amerikaanse studie (Lindsay et al., 2016) (N = 44) toonde dan weer aan dat jongeren met spina bifida vrees geen geschikt werk te vinden dat aansluit bij hun interesses. Die vrees blijkt niet ongegrond, zo kan worden afgeleid uit interviews die Dorner (1976) afnam van 23 adolescenten. Velen onder hen gaven immers aan te willen werken in een ziekenhuis of met kinderen, maar bij 13 van de 23 was er geen enkel vooruitzicht dit doel te zullen bereiken. Sommige ondervraagden gaven weliswaar aan dat het een onrealistisch idee betrof.

De tewerkstelling bij volwassenen met spina bifida fluctueert tussen 24 en 36% (Hunt et al., 1999; Jenkinson et al., 2010; Roach et al., 2010)¹⁰. Dit percentage lag opmerkelijk hoger in een Amerikaanse (Wagner et al., 2015) (N = 72) met 57% en een Engelse studie (Laurence & Beresford, 1976) (N = 51) met 54,90%. Dit verschil zou verklaard kunnen worden door het feit dat deze twee laatste studies over een hoger percentage aan participanten beschikten die het regulier onderwijs hadden gevolgd in vergelijking met Roach et al. (2010). Betreffende de twee andere studies (Hunt et al., 1999; Jenkinson et al., 2010) waren geen data hierover beschikbaar.

Laurence en Beresford (1976) toonden verder aan dat de beroepsactieven tewerkgesteld waren in lichte handenarbeid, administratie of een eerder technische job. Werkzaamheden die minder vaardigheden vereisten, bleken hierbij weinig tot geen voldoening te geven. Uit de studie van Laurence en Beresford (1976) (N = 51) bleek ook dat 5,88% van de volwassenen een dagcentrum bezochten. Het aantal volwassenen met spina bifida werkzaam in een beschutte werkplaats schommelt dan weer tussen 4 tot 5,88% (Laurence & Beresford, 1976; Roach et al., 2010;)¹¹. Tot slot vonden Jenkinson et al. (2010) (N = 21) dat 24% van hun onderzochte populatie vrijwilligerswerk deed.

Sommige medici promoten dit vrijwilligerswerk ook bij jongeren met spina bifida. Dit biedt hen immers de kans om een sociaal netwerk uit te bouwen en belangrijke vaardigheden aan te leren, zoals communicatie, zelfzorg, zelfvertrouwen en persoonlijke mobilisatie (Lindsay et al., 2016). Volgens Laurence en Beresford (1976) vormt het gebrek aan dergelijke vaardigheden (zelfvertrouwen en arbeidscompetentie) een van de grootste barrières voor mensen met spina bifida als ze op zoek gaan naar een baan op de arbeidsmarkt. Net daarom

¹⁰ Respectievelijk: N = 57; N = 21 & N = 84

¹¹ Respectievelijk: N = 84 & N = 51

raden verschillende auteurs aan om specifieke trainingen of goede educatie te voorzien (Dorner, 1976; Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016).

Doorheen de literatuur worden nog verschillende andere factoren benoemd die tewerkstelling bij mensen met spina bifida beïnvloeden. Zo vormen transport en mobiliteit een eerste belangrijke hindernis (Dorner, 1976; Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016). Bij Dorner (1976) getuigden twee adolescenten bijvoorbeeld dat zij geen werk konden vinden door hun moeilijkheden om trappen te doen, terwijl een andere patiënt aangaf te wonen in een buurt zonder openbare vervoersmogelijkheden (Lindsay et al., 2016).

Een tweede belemmerende factor is de intelligentie. Verschillende studies toonden immers aan dat IQ een belangrijke predictor is voor tewerkstelling (Dorner, 1976; Hunt et al., 1999; Laurence & Beresford, 1976; Roach et al., 2010). Ook konden, zoals hierboven reeds aangehaald, herzieningen van de shunt gelinkt worden aan het al dan niet bereiken van bepaalde doelstellingen, waaronder ook tewerkstelling (Hunt et al., 1999). De onderzoekers gaven wel aan dat ook motivatie een belangrijke rol speelt bij het bereiken van de gestelde doelen. Meer specifiek gaan zij er bijvoorbeeld van uit dat iemand met beperkingen op vlak van mobiliteit en incontinentie, sterk gemotiveerd moet zijn om bovenstaande doelen te verwezenlijken. Ook andere studies tonen trouwens het belang van motivatie aan (Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016).

Tot slot speelt ook iemands persoonlijkheid een significante rol bij tewerkstelling. Laurence en Beresford (1976) noemen het zelfs een van de meest cruciale elementen, maar wijden niet uit over een type persoonlijkheid of bepaalde eigenschappen. Blustein (Lindsay et al., 2016) beschrijft daarentegen wel concrete eigenschappen die zorgen voor een betere transitie naar het werkleven. Hij stelt onder meer dat jongeren die beschikken over goede zelfkennis en een goede ondersteunende omgeving bij hun educatie, meer kans hebben om een betere transitie te maken. Zij gaan keuzes bijvoorbeeld niet uit de weg en wegen hun verschillende opties weloverwogen af. Bovendien zijn ze ook op professioneel gebied erg toegewijd. Jongeren waarbij de overgang betreffende tewerkstelling daarentegen moeizamer verloopt, stellen zich eerder passief op in hun zoektocht naar werk. Ze zijn weinig geïnformeerd en exploreren hun zelfconcept minder.

Lindsay et al. (2016) gaan niet uit van deze strikte tweedeling, maar werken met een derde groep jongeren die toewerken naar een goede transitie. In hun onderzoek (N = 44) worden jongeren dan ook ingedeeld in deze drie groepen aan de hand van bovenstaande eigenschappen en lijkt er ondersteuning te worden gevonden voor Blusteins theorie (Lindsay et al., 2016).

5.3 Ontspanningsactiviteiten en sportparticipatie

De Wereldgezondheidsorganisatie omschrijft participatie als ‘betrokkenheid in levenssituaties’. Bij kinderen gaat het dan onder meer om deelname aan recreatie- en ontspanningsactiviteiten. Een bijzondere vorm van participatie is de zogenaamde ‘sociale participatie’, die wijst op het deelnemen aan sociale activiteiten en de mate waarin men in staat is om zichzelf te betrekken in de gemeenschap (Fischer, Church, Lyons, & McPherson, 2015). Sociale participatie is belangrijk voor de gezondheid, omdat het sociale integratie en sociale steun verhoogt. Het houdt tevens verband met levenskwaliteit. Uit wetenschappelijk onderzoek (Essner, Murray, & Holmbeck, 2014) (N = 102) blijkt dat de sociale participatie bij jongeren met spina bifida eerder laag is. De onderzoekers stelden bovendien vast dat er een verband bestond tussen pijnintensiteit en sociale participatie, wat op zijn beurt geassocieerd kon worden met sociale competentie.

In de definitie van sociale participatie wordt ook verwezen naar de kunde om zichzelf maatschappelijk te integreren. Het belang van maatschappelijke integratie blijkt uit het omgekeerde verband met depressie. Zo toont wetenschappelijk onderzoek (Dicianno, Gaines, & Collins, 2009) dat lage integratie een belangrijke factor speelt in het ontstaan van een depressief toestandsbeeld. Eenmaal men een depressie heeft ontwikkeld, kan dit op zijn beurt weer leiden tot verminderde maatschappelijke integratie.

Verschillende factoren bemoeilijken de (sociale) participatie van patiënten met spina bifida. Fischer et al. (2015) stelden bijvoorbeeld vast dat incontinentieproblemen bij kinderen en jongeren met spina bifida een belangrijke barrière vormen voor participatie en het ontwikkelen van vriendschappen. Een reviewartikel (Lindsay, 2014) stelde dat vele jongeren hun vrijetijdsbesteding dan ook aanpassen aan de eisen van de incontinentieproblemen. Mensen met spina bifida zelf lijken zich dus bewust van de impact van hun aandoening op hun mogelijkheid om te participeren (Lindsay, 2014). Zij concludeert dan ook dat het zich zelfstandig kunnen beredderen van deze problemen belangrijk is voor de (sociale) participatie. Het stigma rond incontinentie blijft echter groot (Lindsay, 2014). Zo bleek dat jongeren die goede vriendschapsbanden onderhielden, toch probeerden hun incontinentie te verbergen (Fischer et al., 2015). Kelly, Altiok, Gorzkowski, Abrams, en Vogel (2010) (N = 63) beschreven dat incontinentieproblemen vaker een barrière vormden voor participatie in de leeftijdscategorie van 6-12j in vergelijking met jongere (2-5j) en oudere (13-18j) kinderen. Dat is immers de leeftijd waarop kinderen met spina bifida trachten zelfstandig om te gaan met deze problematiek. Beide onderzoeken geven dan ook aan dat het belangrijk is om kinderen in deze fase sterk te motiveren, daar het proces rond het zelfstandig beredderen van

incontinentieproblemen uitdagend en onvoorspelbaar is.

Een tweede obstakel voor participatie is mobiliteit. Mensen met spina bifida die zeer vaak een rolstoel moeten gebruiken, zijn immers een stuk minder mobiel dan diegenen die hiervan geen of minimaal gebruik moeten maken. Dit heeft tot gevolg dat de eerste groep over een minder actieve daginvulling beschikt en meer dagen en avonden thuis doorbrengt (Dicianno, Gaines et al., 2009) (N = 208). Kelly et al. (2010) (N = 63) vonden overigens geen verschil in participatie naargelang de plaats van het letsel. In hun studie werd participatie bovendien ook bij verschillende leeftijdscategorieën nagegaan, waaruit bleek dat jonge kinderen met spina bifida (2-5j) vaker deelnemen aan fysieke activiteiten of handelingen die bepaalde vaardigheden vergen. Naarmate men ouder wordt, is men echter steeds minder fysiek actief, waardoor er uiteindelijk een kloof ontstaat met gezonde leeftijdsgenoten. In de hogere leeftijdscategorie (6-18j) wordt meer tijd gependeed aan recreatie en sociale activiteiten dan aan fysieke handelingen. Vooral tv-kijken en muziek beluisteren zijn twee belangrijke dagdagelijkse activiteiten bij deze groep jongeren. Deze bevindingen lagen in lijn met vorig onderzoek, waarin geconcludeerd werd dat kinderen met beperkingen vaker kiezen voor stille en rustige ontspanningsactiviteiten (Kelly et al., 2010). Fysiek actief zijn levert nochtans vele voordelen op. Zo verbetert het bij kinderen en jongeren de spiersterkte, het uithoudingsvermogen en de mentale gezondheid (Marques et al, 2015). Veel jonge mensen zijn echter niet actief genoeg en de situatie is nog zorgwekkender bij mensen met een beperking. Amper 28-38,7% en 37-38,7% van de jongeren met spina bifida zou respectievelijk participeren in gestructureerde of ongestructureerde fysieke activiteiten (Marques et al, 2015 & Johnson et al, 2007)¹². Marques, Maldonado, Peralta, en Santos (2015) gingen na welke onderliggende factoren hiertoe een belangrijke rol spelen, maar enkel bij eigen perceptie van de competentie werd een positieve correlatie gevonden. Dit verband gold ook alleen maar voor ongestructureerde fysieke activiteiten. Andere factoren zoals BMI, geslacht, fysieke activiteit van ouders en attitude ten aanzien van fysieke activiteit bleken irrelevant.

Verschillende studies geven aan dat mensen met spina bifida er vaak een inactieve levensstijl op na houden (Buffart, van den Berg-Emons et al., 2008; Buffart, van der Ploeg et al., 2008; Crytzer, Dicianno, & Kapoor, 2013; Dicianno, Gaines et al., 2009; Marques et al., 2015). Dit kan aanleiding geven tot een vicieuze cirkel, daar het zorgt voor verminderde spiersterkte en uithouding en een stijging in lichaamsvet. Dit alles beperkt op zijn beurt

¹² Respectievelijk: N = 31 & N = 348

uiteeraard de onafhankelijkheid van de patiënt en beïnvloedt aldus de kwaliteit van leven (Crytzer et al., 2013). Uit de literatuur blijkt bovendien meermaals (Buffart, van den Berg-Emons et al., 2008; Rendeli et al., 2004) dat cardiovasculaire ziektes de allerbelangrijkste doodsoorzaak zijn voor mensen met spina bifida, ook al is dit niet eenduidig het geval (Roach et al., 2010). Buffart, van den Berg-Emons et al. (2008) (N = 31) analyseerden bijvoorbeeld de aanwezigheid van clusters van risicofactoren op cardiovasculaire ziektes bij adolescenten en jongvolwassenen met spina bifida myelomeningocele. Zij bekwamen een percentage van 42% in vergelijking met 15-23% bij de normale bevolking.

Het is bijgevolg erg belangrijk om mensen met spina bifida een gezonde levensstijl aan te raden teneinde de incidentie van cardiovasculaire ziektes op latere leeftijd te reduceren. Ondanks het feit dat fysieke activiteit hiertoe belangrijk is, kon bovenstaande studie (Buffart, van den Berg-Emons et al., 2008) geen verband vinden tussen de aanwezigheid van de clusters van risicofactoren en fysieke activiteit.

Sport, als subcategorie van fysieke activiteit, is gepland, repetitief en gestructureerd (Buffart, van der Ploeg et al., 2008). Uit wetenschappelijk onderzoek (Buffart, van der Ploeg et al., 2008) (N = 51) komt naar voren dat adolescenten en jongeren met spina bifida evenveel aan sport doen als andere personen met fysieke beperkingen. Hun energieverbruik ligt weliswaar lager. Buffart, van der Ploeg et al. (2008) vragen zich dan ook af of dit te wijten is aan het beoefenen van specifieke sporten of aan een lagere intensiteit qua participatie. Voor dit laatste werd evidentie gevonden in een andere studie (Crytzer et al., 2013). Buffart, van der Ploeg et al. (2008) (N = 51) bekwamen uiteindelijk dat 69% van de adolescenten en jongvolwassenen met spina bifida myelomeningocele aan sport deden gedurende 30 min/dag, met handbiking, fitness, zwemmen, rolstoelbasketbal en rolstoeltennis als vijf meest beoefende sporten. De voornaamste redenen voor het beoefenen van sport bleken het verbeteren van de uithouding en het plezier. Zeker dat laatste blijkt erg belangrijk te zijn, daar het hebben van plezier tijdens het sporten net aanleiding geeft tot meer sporten (Buffart, van der Ploeg et al., 2008). Interventies die zich richten op het verhogen van fysieke activiteit bij jongeren met spina bifida, gespecificeerd naar sport, kunnen dus best een individuele aanpak hanteren, zodat elk individu een sport kan beoefenen die hij of zij leuk vindt.

Andere redenen om te sporten waren het hebben van sociaal contact en het verbeteren van de gezondheid. Gebrek aan tijd en interesse bleken dan weer de meest frequente redenen om niet te sporten. Gebrek aan energie en transport, de fysieke beperking en de vrees om bekritiseerd te worden, werden eveneens genoemd (Buffart, van der Ploeg et al., 2008). Uit de correlatieve verbanden bleek bovendien dat meer jongens dan meisjes met spina bifida

myelomeningocele aan sport deden. Ook jongeren die meer sociale steun ontvingen, hadden een hogere kans om een sport te beoefenen (Buffart, van der Ploeg et al., 2008). Sporten werd ook gelinkt aan atletische competentie en het verlangen om een beter fysiek voorkomen te hebben (Buffart, van der Ploeg et al., 2008; Crytzer et al., 2013). Hydrocephalus, het educationeel niveau, cognitief functioneren en de mate van mobiliteit bleken niet gerelateerd aan sportparticipatie. Als we alle bovenstaande verbanden in rekening brengen, valt het op dat vooral persoonlijke elementen een rol spelen. Hierdoor kunnen we concluderen dat engagement voor mensen met spina bifida eerder een keuze is dan een kwestie van niet kunnen (Buffart, van der Ploeg et al., 2008).

Het spreekt voor zich dat jongeren die participeren in sport er meer actieve levensstijlen op na houden in vergelijking met diegenen die geen sport beoefenen. Sportparticipatie telt namelijk voor 16% van de totale dagelijkse activiteit bij de sporters, terwijl de niet-participanten dit niet lijken te compenseren met andere activiteiten zoals het doen van huishoudelijke taken (Buffart, van der Ploeg et al., 2008) (N = 51). Diegenen die sport beoefenden, spendeerden ook meer tijd aan wandelen of rolstoelrijden (Buffart, van der Ploeg et al., 2008) (N = 51).

5.4 Mobiliteit

Mobiliteit is belangrijk in verschillende levensdomeinen. Bij een hoog niveau van mobiliteit is het immers mogelijk om dagdagelijkse activiteiten uit te voeren en te participeren aan sport of andere ontspanningsactiviteiten (Dicianno, Bellin, & Zabel, 2009). Zo werd reeds aangehaald dat mensen met spina bifida die altijd een rolstoel moeten gebruiken, een lager activiteitsniveau behalen in vergelijking met diegenen die er slechts partieel of helemaal geen gebruik van dienen te maken (cfr. supra). Mobiliteit maakt ook een zekere graad van zelfstandigheid mogelijk (Dicianno, Bellin et al., 2009). Wagner et al. (2015) (N = 38) vonden dat 53% van hun participanten met spina bifida soms of altijd het gevoel heeft dat de aandoening een invloed heeft op hun mogelijkheid om te kunnen participeren in de gemeenschap. Om de participatie te bevorderen, trachten personen met spina bifida dan ook hun mobiliteit te verbeteren door het halen van een rijbewijs of gebruik te maken van het openbaar vervoer. Uit een Zweedse studie echter, vernoemd in het artikel van Johnson et al. (2007), bleek dat volwassenen met spina bifida vaak mobiliteitsproblemen ondervinden door een incompatibiliteit van gebruikte hulpmiddelen met moeilijk toegankelijke omgevingen.

In de literatuur lijkt er een verband te bestaan tussen het specifiek type van spina bifida en mobiliteit (Schechter et al., 2015) (N = 2054). Zo lag het percentage voor gebruik

van hulpmiddelen hoger in de groep van mensen met spina bifida myelomeningocele (MMC) in vergelijking met lipomeningocele (LMC). In LMC schommelt het percentage van ‘community ambulators’ dan weer rond 87,2-91% , terwijl dit bij MMC slechts 56,4-57% bedraagt (Chang, Wong, Huang, Chan, & Yang, 2008; Tsai, Yang, Chan, Huang, & Wong, 2002)¹³. Het dient wel te worden aangestipt dat in deze studies geen duidelijke definitie wordt gegeven van ‘community ambulation’. Het lijkt erop dat men er in de tweede studie ‘geen gebruik van hulpmiddelen’ mee bedoelt, terwijl men er in de eerste studie helemaal niet verder op ingaat. Hieruit kan hoe dan ook geconcludeerd worden dat de prognose voor mobiliteit beter is voor LMC in vergelijking met MMC. Tsai et al. (2002) (N = 63) vergeleken tot slot de scores van beide groepen op vlak van mobiliteit, zelfstandigheid en sociaal functioneren, afgenomen via de Pediatric Evaluation of Disability Inventory (PEDI). De resultaten toonden aan dat kinderen met MMC lager scoorden op de domeinen mobiliteit en sociaal functioneren in vergelijking met kinderen met LMC. Specifiek voor MMC werd ook een beduidend regionaal verschil gevonden in het gebruik van manueel bedienbare rolstoelen. In een studie in Amerika (Johnson et al., 2007) (N = 348) liep dit aantal immers op tot 52% van hun participanten, terwijl in Taiwan (Chang et al., 2008) (N = 78) slechts 28,2% behaald werd. Een pasklaar antwoord voor deze discrepantie is nog niet voorhanden, maar het Taiwanees onderzoek stelt weliswaar verschillende hypothesen voorop die een verklaring kunnen bieden:

- 1) een rolstoel weerspiegelt een handicap (stigma in Taiwan)
- 2) onvoldoende sociale bijstand voor rolstoelgebruik in hun natie
- 3) arme economische situaties binnen sommige families in Taiwan

Een tweede vaststelling in de literatuur is het verband tussen de plaats van het letsel en mobiliteit (Chang et al., 2008; Dicianno, Bellin et al., 2009; Roach et al., 2010; Sahmat et al., 2017; Tsai et al., 2002; &). Mensen met een lager letsel kennen over het algemeen een betere mobiliteit. Zo toonden Dicianno, Bellin et al. (2009) (N = 61) aan dat jongeren die rolstoelgebonden zijn, een hoger letsel hebben. Het verschil in mobiliteit wordt reeds duidelijk rond de kleutertijd (3-4j). Zo bleek uit een wetenschappelijk artikel (Johnson et al., 2007) (N = 348) dat kinderen met een hoog letsel in het begin nog zelfstandig konden stappen, maar rond de kleuterleeftijd overschakelden op rolstoelgebruik. Chang et al. (2008)

¹³ Respectievelijk: N = 63 & N = 78

(N = 78) gingen nog een stap verder en vonden tevens een verband tussen de plaats van het letsel en de gebruikte hulpmiddelen: hoe hoger het letsel, hoe zwaarder het rolstoelmodel dient te zijn. Toch vonden zij in hun studie ook nog andere prognostische factoren die een rol spelen in mobiliteit, zoals Chiari-II-malformatie en motivatie. Deze onderzoekers concludeerden hieruit dan ook dat de plaats van het letsel niet kan gebruikt worden als enige voorspellende factor inzake mobiliteit.

Vervolgens onderzochten Schechter et al. (2015) in een zeer grote studie (N = 2054) mogelijke verbanden tussen een aantal demografische variabelen en mobiliteit. De prevalentie van community ambulators¹⁴ was even hoog bij jonge als oudere kinderen met spina bifida, alleszins in de eerste 10 levensjaren. Vanaf de late kindertijd, adolescentie en jong volwassenheid wordt een progressieve daling opgemerkt. Deze bevinding wordt bijgetreden door een andere studie (Johnson et al., 2007) (N = 348). Hier stelde men namelijk vast dat naarmate kinderen met spina bifida ouder worden, ze niet langer zelfstandig stappen, maar gebruik dienen te maken van een rolstoel of een combinatie van verschillende hulpmiddelen (Johnson et al., 2007). Er werd geen verband gevonden met ras of etniciteit, maar er werd wel een geslachtsverschil vastgesteld. Zo bleken meer vrouwen dan mannen community ambulators te zijn. Opnieuw blijft het gissen naar een onderliggende oorzaak: mogelijks biologisch (hormonaal of anatomische verschillen) of door een verschil in culturele en sociale verwachtingen van meisjes versus jongens of beiden (Schechter et al., 2015).

Eén studie (Dicianno, Bellin et al., 2009) (N = 61) ging tot slot dieper in op gelijkenissen en verschillen tussen jongvolwassenen met spina bifida die rolstoelgebonden waren, zij die een rolstoel slechts parttime gebruikten en zij die helemaal geen rolstoel nodig hadden. Op vlak van zelf-management bleken de drie groepen evenwaardig te scoren. Hieruit kan geconcludeerd worden dat de rolstoel een bijdrage levert bij zelf-management activiteiten. Vervolgens werd bij alle groepen de World Health Organization Quality-of-Life Brief Instrument afgenomen om de levenskwaliteit na te gaan. Uit de scores kon afgeleid worden dat rolstoelgebondenheid geassocieerd werd met een verlaagde kwaliteit van leven. Weliswaar werd er geen verschil gevonden tussen de verschillende groepen op vlak van psychische stress ('distress'). Er werd immers bij alle groepen een hoge prevalentie gevonden, wat erop wijst dat de betere mobiliteit bij personen die geen rolstoel gebruiken, geen buffer vormt tegen psychische distress.

¹⁴ Community ambulators= het individu stapt binnens- en buitenshuis voor de meeste activiteiten en zou krukken of een beugel of beiden nodig kunnen hebben. Hij/zij gebruikt een rolstoel enkel voor lange afstanden (Schechter et al, 2015).

Onder bovenstaande noemer 'mobiliteit' werden ook wetenschappelijke onderzoeken rond het behalen van een rijbewijs bij mensen met spina bifida geïncorporeerd in deze literatuurstudie. In een studie met volwassenen met spina bifida myelomeningocele (Roach et al., 2010) (N = 84) betrof het percentage 54%. In een andere, kleine studie (Simms, 2009) leden alle participanten, met een gemiddelde leeftijd van 17 jaar, aan spina bifida myelomeningocele met of zonder hydrocephalus. Vijftien van de 28 betrokken jongeren behaalden uiteindelijk hun rijbewijs. Bij het begin van het longitudinale onderzoek had men een perceptuele en cognitieve test afgenomen om te kijken of de scores een voorspellende waarde hadden in het kader van het behalen van een rijbewijs. Uiteindelijk bleek het verschil in scores tussen de twee groepen niet significant. Dit kan betekenen dat beperkingen op perceptueel en cognitief vlak geen determinerende waarde hebben oftewel gecompenseerd worden door andere vaardigheden. De onderzoekers concludeerden dan ook dat andere factoren, zoals motivatie bij de jongeren zelf, steun van ouders, vrienden en familie en financiële ondersteuning, zeer belangrijk zijn in het behalen van een rijbewijs. Ook volharding bleek een belangrijk aandachtspunt, daar het leren autorijden veel tijd in beslag nam. Weliswaar behaalde bijna de helft van de groep zijn rijbewijs binnen 2-3j na het testen van de cognitieve en perceptuele vaardigheden (Simms, 2009).

5.5 Zelfstandigheid

In een klein wetenschappelijk onderzoek (Sirzai, Dogu, Demir, Yilmaz, & Kuran, 2014) (N = 28) in Turkije werd opnieuw de PEDI afgenomen. Er werd hierbij een verhoogde functionele afhankelijkheid van de voogd(en) vastgesteld bij kinderen met spina bifida. De PEDI meet niet alleen het domein van zelfzorg, maar brengt ook mobiliteit en sociaal functioneren in kaart. Hierdoor is het moeilijker om conclusies te trekken op vlak van zelfzorg alleen, mede doordat het artikel niet dieper ingaat op dit specifiek thema (Sirzai et al., 2014). Een andere studie, benoemd in het artikel van Sirzai et al. (2014), focuste wel enkel op vaardigheden betreffende zelfzorg bij 35 kinderen met MCC. Men stelde vast dat vele onder hen eerder traag waren in het ontwikkelen van onafhankelijkheid op dit vlak en 60% had nood aan matige tot maximale assistentie van een voogd. Een Nederlandse studie (Schoenmakers, Uiterwaal, Gulmans, Gooskens, & Helders, 2004) (N = 23) sluit hierbij aan. Zij vonden dat 69% van hun participanten over weinig vaardigheden beschikten op vlak van zelfzorg. Deze bevinding werd ook beaamd in een reviewartikel (Lindsay, 2014). Tsai et al. (2002) (N = 63) vonden respectievelijk dat 39 en 48% van de kinderen in dagdagelijkse activiteiten gedeeltelijke of totale assistentie nodig had. In dit artikel wordt weliswaar geen verdere

informatie gegeven omtrent de precieze aard van deze activiteiten. Een andere studie (Peny-Dahlstrand, Krumlinde-Sundholm, & Gosman-Hedström, 2011) (N = 50) toonde aan dat kinderen met spina bifida weinig autonomie hebben op vlak van zelfzorg. In lijn met al deze onderzoeken stellen ook Holmbeck en Devine (2010) in hun reviewartikel dat kinderen en adolescenten met spina bifida minder gedragsautonomie in de thuisomgeving bereiken.

In de literatuur worden er verschillende factoren benoemd die verband houden met zelfstandigheid. Zo is eerst en vooral de plaats van het letsel belangrijk. De afhankelijkheid in dagdagelijkse activiteiten is groter bij kinderen waarvan het letsel hoger ligt (Sirzai et al., 2014). Kalucy et al. (1996) stelden ook vast dat kinderen met spina bifida meningocele geen assistentie nodig hadden bij taken zoals eten, zich aankleden en zich wassen, terwijl kinderen met spina bifida myelomeningocele bij al deze activiteiten meer hulpbehoevend waren. Een derde factor die een rol speelt, is een onafhankelijke mobiliteit (Peny-Dahlstrand et al., 2011; Sirzai et al., 2014). Zo blijkt dat rolstoelgebruikers met spina bifida een lagere zelfstandigheid bezitten in vergelijking met kinderen die een rolstoel sporadisch of niet gebruiken. Zij hebben dus meer nood aan assistentie op vlak van zelfzorg en zelftransport (Dicianno, Bellin et al., 2009). Als vierde factor worden spiersterkte en intelligentie aangehaald (Sirzai et al., 2014). Tot slot werd een sterk verband gevonden tussen ‘process skills’¹⁵ en zelfstandigheid (Peny-Dahlstrand et al., 2011).

Ondanks het feit dat er uit de literatuur aldus blijkt dat kinderen en adolescenten met spina bifida eerder een lager niveau van zelfstandigheid behalen op vlak van zelfzorg, lijkt er wel een positieve evolutie merkbaar naar jongvolwassenheid en volwassenheid toe. Zo bleek uit een onderzoek (Johnson et al., 2007) (N = 348) dat de meeste jongvolwassenen een matige tot hoge onafhankelijkheid bereikten bij taken zoals eten, zich wassen en zich aankleden¹⁶. Bij dit laatste liep het percentage bij volwassenen op naar 85%. Meer dan de helft (65%) winkelde tevens zelfstandig (Roach et al., 2010) (N = 84). De resultaten van een Amerikaanse studie (Wagner et al., 2015) (N = 72) lijken in lijn te liggen met bovenstaande studie. Bij volwassenen met spina bifida gaven 29%, 35%, 25%, 32%, 73%, 69%, 15%, aan moeite te hebben met respectievelijk zich aankleden, koken, zich wassen, zich verplaatsen, stappen, trappen doen en rijden met een rolstoel. Over het algemeen bleek dat 86% moeite had met één dagdagelijkse activiteit en 50% met drie activiteiten. Stappen en trappen doen bleken moeilijk

¹⁵ Process skills: actions carried out to initiate different steps of an activity and to go proceed until the goal of that activity is reached (Peny-Dahlstrand et al., 2011)

¹⁶ Deze studie vond bij deze activiteiten geen significante verschillen tussen adolescenten en jongvolwassenen terwijl de reeds eerder vernoemde reviewartikels toch aantonen dat adolescenten weinig gedragsautonomie bereiken.

voor de meeste bevrageden, terwijl zich aankleden, koken en zich wassen slechts door 1/3 als moeilijk wordt ervaren (Wagner et al., 2015). Kalucy et al. (1996) vonden ook een positief verband tussen leeftijd en zelfstandigheid.

Het zelfstandig managen van de aandoening lijkt ook belangrijk binnen het domein zelfzorg (Bellin et al., 2012). Uiteraard moeten ouders deze zorg op zich nemen zolang hun kind niet over de vaardigheden beschikt om dit zelf te doen, maar desalniettemin is het belangrijk om deze zelfstandigheid doorheen de jaren te bereiken. Zo concludeerden Bellin et al. (2012) in hun longitudinale studie dat een verhoging van het zelfmanagement betreffende de aandoening bij jongvolwassenen omgekeerd evenredig was met depressieve symptomen. Lindsay (2014) gaf weliswaar aan dat mensen met spina bifida op enkele obstakels botsen wanneer men tracht zijn eigen aandoening zelfstandig te managen zoals een gebrek aan informatie omtrent zijn gezondheid, het begrijpen van het complexe aan spina bifida,...

Wanneer gewone jongeren overgaan van adolescentie/jongvolwassenheid naar volwassenheid, kruisen verschillende uitdagingen hun pad: ze moeten een professionele loopbaan uitbouwen, verlaten het ouderlijk nest, gaan zelfstandig wonen en stichten zelf een gezin. Bepaalde onderzoekers stellen dat er voor jongvolwassenen met spina bifida nog meer specifieke uitdagingen zijn, zoals het zelfstandig managen van hun conditie (Bellin et al., 2012). Dit zelfstandig managen is echter noodzaak om de stap te kunnen zetten naar zelfstandig wonen.

5.6 Relaties

Sociale participatie en vriendschapsbanden zijn erg belangrijk, aangezien ze een niet te onderschatten rol kunnen spelen bij het ontwikkelen en behouden van zelfvertrouwen (Fischer et al., 2015). Doch komt uit wetenschappelijk onderzoek naar voren dat kinderen en adolescenten met spina bifida minder vrienden hebben of dat hun vriendschapsbanden van lagere kwaliteit zijn (Essner & Holmbeck, 2010; Essner et al., 2014; Holmbeck & Devine, 2010; Kalucy et al., 1996; Lindsay, 2014; Wagner et al., 2015). In een Engelse studie (Dorner, 1976) (N = 46) stelde men daarentegen vast dat slechts een klein aantal van de ondervraagde adolescenten (8,70%) op school geen vriendschapsbanden had. Het bleek echter moeilijk om na te gaan hoe hecht de vriendschapsbanden waren bij mensen die aangaven er wel te hebben. De onderzoeker concludeerde dat ze eerder oppervlakkig waren (Dorner, 1976). In deze studie werd tevens een significant verschil gevonden tussen vriendschapsbanden bij adolescenten van het regulier onderwijs en adolescenten in het bijzonder onderwijs. Zo bleek dat adolescenten uit het bijzonder onderwijs minder vrienden hadden buiten de schoolmuren.

Dit verschil lijkt echter eerder te wijten aan een gebrek aan kansen om sociaal contact te hebben dan aan sociale incompetentie van de persoon in kwestie. Dit wordt tevens in ander onderzoek beaamd (Fischer et al., 2015). Holmbeck en Devine (2010) stelden, net zoals Lindsay (2014), over het algemeen dat jongeren met spina bifida minder sociaal contact hebben met vrienden buiten de schoolmuren. Door digitale communicatie (gsm en computer) wordt de sociale participatie weliswaar verhoogd (Wagner et al., 2015). Al blijkt uit ander onderzoek dat de hiermee opgebouwde vriendschappen beperkt blijven tot de digitale omgeving (Fischer et al., 2015).

Wagner et al. (2015) vonden trouwens ook dat de sociale aanvaarding vanwege vrienden ten aanzien van volwassenen met spina bifida laag ligt. Bij adolescenten vond Dorner (1976) (N = 46) ter vergelijking dat respectievelijk 41,30% geplaagd en 10,86% gepest werden.

Dorner (1976) vond bij meisjes met spina bifida ook een verband tussen sociale isolatie en zich ongelukkig voelen. De specifieke richting van het verband kan niet gedetermineerd worden, maar het lijkt plausibel dat meisjes die sociaal geïsoleerd zijn door mobiliteitsproblemen, zich minder goed in hun vel voelen. In een Amerikaanse studie (Essner & Holmbeck, 2010), waarin sociale competentie en aanvaarding werden gemeten, werd echter geen verband gevonden tussen depressieve symptomen en positieve vriendschapservaringen. Desalniettemin mag hieruit niet geconcludeerd worden dat er geen verband bestaat tussen de gemoedstoestand van adolescenten met spina bifida en hun ervaringen op sociaal vlak.

Bij de overgang naar jongvolwassenheid zou het verschil in sociaal functioneren tussen mensen met spina bifida en mensen zonder enige beperking steeds groter worden. De sociale vaardigheden worden bovendien ook steeds belangrijker om andere doeleinden te bereiken, zoals een partnerrelatie (Essner & Holmbeck, 2010)

Over het algemeen blijkt uit wetenschappelijk onderzoek dat adolescenten met spina bifida een hogere kwetsbaarheid hebben voor het ontwikkelen van internaliserende problemen (depressieve symptomen en angstklachten) (Essner & Holmbeck, 2010; Holmbeck & Devine, 2010). Het belang van familiaal functioneren speelt dan een cruciale rol (Bellin et al., 2009; Bellin et al., 2012; Dorner, 1976; Essner & Holmbeck, 2010; Wagner et al., 2015). Zo vormen familiale cohesie en positieve familiale interacties beschermende factoren voor de mentale gezondheid van deze jongeren (Bellin et al., 2009; Bellin et al., 2012). Meer specifiek bestaan bovenstaande interacties uit het gezamenlijk nemen van beslissingen en openheid inzake emoties en zorgen zij voor steun en bemoediging bij individuele groei (Bellin et al., 2012). Anderzijds vormen familiale conflicten een risicofactor voor depressieve symptomen of

angstklachten bij adolescenten met spina bifida (Bellin et al., 2009). Er werd tevens een verband vastgesteld tussen overbescherming door ouders en depressieve symptomen bij de adolescent (Bellin et al., 2009), al moet er wel enige voorzichtigheid aan de dag worden gelegd, vermits de richting van het verband tot op heden niet duidelijk is. Uit twee wetenschappelijke onderzoeken blijkt dat de familiale satisfactie over het algemeen goed is (Bellin et al., 2009; Dorner, 1976)¹⁷. Doch delen Holmbeck en Devine (2010) in hun reviewartikel een andere mening. Zij stelden dat spina bifida zorgt voor een familiaal disfunctioneren op bepaalde aspecten, zoals familie cohesie, maar niet op allemaal, zoals het aantal familiale conflicten. Vooral gezinnen met een lage socio-economische status zouden risico lopen op een verlaagde familie cohesie. Voorts besloten zij ook dat bevindingen uit twee studies in hun onderzoek aangaven dat 12-13% van de gezinnen met een kind met spina bifida gekenmerkt werd door familiaal disfunctioneren.

Dorner (1976) (N = 46) vond dat 65% van de adolescenten met spina bifida graag wilde trouwen en zichzelf ook in staat zag om dit te doen. Wanneer we echter kijken naar de realiteit, stelden Holmbeck en Devine (2010) in hun reviewartikel dat mensen met spina bifida minder daten gedurende de adolescentie. Daarnaast blijkt dat ongeveer 72-76% van de volwassenen met spina bifida geen partnerrelatie heeft of niet gehuwd is (Linstow et al., 2014; Roach et al., 2010; Verhoef et al., 2005)¹⁸. Linstow et al. (2014) (N = 53) vonden weliswaar dat 58% van hun participanten het afgelopen jaar een partnerrelatie had gehad. Het percentage inzake samenwonen schommelt rond 17% en dat van echtscheidingen rond 2-8% (Linstow et al., 2014; Roach et al., 2010)¹⁹.

Verhoef et al. (2005) analyseerden de obstakels die vele jongvolwassenen kennen bij het aangaan van een partnerrelatie, zoals een gebrek aan zelfvertrouwen, het gebruik van een rolstoel en incontinentie. Urine-incontinentie blijkt onder andere in het onderzoek van Gatti, Ferrari, Casolari, Casadio, en Scire (2009) een belangrijke predictor te zijn voor het hebben van een partnerrelatie (Gatti et al., 2009; Verhoef et al., 2005), terwijl dit niet zo werd bevonden bij Linstow et al. (2014). Voorts bleek uit het onderzoek van Gatti et al. (2009) dat leeftijd, plaats van het letsel en geslacht eveneens belangrijke predictoren zijn. Zij vonden dat mannen met spina bifida meer kans hadden op een partnerrelatie, terwijl Linstow et al. (2014) dit juist concludeerden voor het vrouwelijk geslacht. Verhoef et al. (2005) vonden dan weer dat hydrocephalus een voorspeller bleek voor het hebben van een partnerrelatie.

¹⁷ Respectievelijk: N = 61 & N = 46

¹⁸ Respectievelijk: N = 84; N = 53 & N = 157

¹⁹ Respectievelijk: N = 84 & N = 53

In een Zuid-Koreaanse studie (Choi et al., 2016) (N = 47) werd aangetoond dat slechts 51% van de jongvolwassen mannen met spina bifida seksueel actief waren in vergelijking met 98,8% van de gezonde mannen. Het verschil in erectiel functioneren zou een verklaring kunnen zijn voor dit groot contrast. Verhoef et al. (2005) vonden in hun grote studie (N = 157) ook dat slechts respectievelijk 47 en 22% van de participanten in het afgelopen jaar seksueel contact en seks hadden gehad. De helft van de bevroegden was over het algemeen tevreden met zijn huidig seksleven. Dit laatste is in overeenstemming (45%) met het onderzoek van Linstow et al. (2014) (N = 53). Echter beschreef 51% van zijn participanten met spina bifida zijn seksleven als ‘a total failure’ of disfunctioneel, waarbij 25% zich (heel) ongelukkig voelde met zijn huidig seksleven. Dit gold zowel voor vrouwen als voor mannen. De plaats van het letsel is ook een belangrijke predictor voor seksuele activiteit (Gatti et al., 2009). Andere belangrijke predictoren in dit onderzoek bleken geslacht (mannen > vrouwen) en urine- incontinentie. Verhoef et al. (2005) vonden nochtans dat vrouwen meer kans hadden op seksuele activiteit in het afgelopen jaar. Ook over de rol van geslacht op seksueel gebied is er dus onenigheid in de literatuur. Bij Verhoef et al. (2005) waren ook hydrocephalus, IQ en incontinentie belangrijke predictoren.

5.7 Schools functioneren

Verschillende wetenschappelijke onderzoeken hebben getracht in kaart te brengen hoeveel kinderen met spina bifida naar school gaan en welk curriculum ze volgen. Sahmat et al. (2017) (N = 86) vonden in hun onderzoek te Maleisië dat 36% van de kinderen met spina bifida het nationaal curriculum volgde. Bij de overige ruime 60% waren geen data beschikbaar. In een Oegandees onderzoek (Sims-Williams, Sims-Williams, Kabachelor, & Warf, 2017) (N = 62) werd tevens gevonden dat 36% het regulier onderwijs volgde en 9% het bijzonder onderwijs. Echter liep het percentage van kinderen die niet naar school gingen op tot 55% waar urine-incontinentie en het bijhorend pestgedrag voor velen (42%) de onderliggende oorzaak betrof. In vergelijking met bovenstaande lage inkomenslanden blijkt het percentage kinderen met spina bifida in het regulier onderwijs hoger te zijn voor hoge inkomenslanden. In een Australisch onderzoek (Kalucy et al., 1996) (N = 72) bekwam men 76,1% aan participanten die het regulier onderwijs volgde of had gevolgd. Ongeveer 9,72% zat ook in het bijzonder onderwijs. In totaal werden bij maar liefst 71,8% van de kinderen leerproblemen gemeld door de ouders. Volgens dit onderzoek hield dat verband met de aanwezigheid van hydrocephalus. In een Amerikaanse studie (Roach et al., 2010) (N = 84) lag de deelname aan het bijzonder onderwijs beduidend hoger, namelijk 54%. De overige 44%

volgde het regulier onderwijs. Slechts 8% had een universitair diploma. Ondanks het feit dat deze laatste studie vrij recent werd gepubliceerd, werd het onderzoek zelf uitgevoerd in de jaren '80. Om die reden wordt verwezen naar een ander, meer recent Amerikaans onderzoek (N = 71), uitgevoerd in 2001, waaruit blijkt dat 85% van de participanten met spina bifida regulier secundair onderwijs of universitaire studies volgde of had gevolgd.

Roach et al. (2010) wijzen als mogelijke verklaring voor dit groot verschil in universitaire studies op de evolutie die het bijzonder onderwijs heeft doorgemaakt. Terwijl dit type onderwijs 30-70j geleden minder gericht was op de specifieke problemen van de betrokkenen, lijkt dat aspect heden ten dage wel aanwezig te zijn. Het krijgen van deze meer gerichte begeleiding in de eerste jaren van het schoolcurriculum, zou bij kinderen met spina bifida vaardigheden kunnen ontwikkelen die de kans op slagen bij universitaire studies verhogen. Ook het feit dat er tegenwoordig vele richtingen beschikbaar zijn, men ook online cursussen kan volgen en gebouwen toegankelijker worden ingericht, zou kunnen verklaren waarom een steeds grotere groep mensen universitaire studies kan aanvatten, aldus Roach et al. (2010). Meer recente Amerikaanse cijfers wijzen inderdaad op een verhoging in het volgen van universitaire studies. Johnson et al. (2007) (N = 348) vonden dat 50% van de jongvolwassenen met spina bifida een diploma van het secundair onderwijs behaalde en 14% een universitair diploma. Hun deelname aan het bijzonder onderwijs lag beduidend lager (27%) dan bij Roach et al. (2010), terwijl het cijfer voor regulier onderwijs aldus hoger lag (73%). Uit hun onderzoek bleek dat 43% van de studenten met spina bifida in regulier onderwijs maximaal twee jaar achterliepen op hun oorspronkelijk curriculum. Een bijkomende 9% zat meer dan twee jaar achterop en 21% van de participanten kreeg bijles. Op deze manier wordt de uiteindelijke 73% bekomen. Wagner et al. (2015) (N = 72) vonden tot slot dat bij 75% van de bevroegde volwassenen met spina bifida het hoogst behaalde diploma dat van het secundair onderwijs was. De overige 25% had een universitair diploma (Wagner et al., 2015).

Tot slot zijn er ook twee Engelse studies beschikbaar met percentages, maar gezien beide onderzoeken dateren van 1976, werden deze cijfers hier geëxcludeerd vanwege representativiteit.

Positieve ervaringen in de schoolse context blijken belangrijk te zijn, daar ze verband houden met depressieve symptomen (Essner & Holmbeck, 2010). Ter verduidelijking heeft deze studie via vragenlijsten de competentie gemeten bij adolescenten met spina bifida en werd er ook gekeken naar hun schoolresultaten. Over het algemeen blijkt dat adolescenten met spina bifida minder positieve ervaringen hebben in verschillende contexten in

vergelijking met gezonde leeftijdsgenoten, ook in de schoolse context. Neurocognitieve beperkingen worden als een onderliggende oorzaak genoemd, maar ook het feit dat een deel van de zelfzorg op school moet gebeuren, zou leiden tot een lager aantal positieve ervaringen bij adolescenten met spina bifida.

Er werd in de literatuur gezocht naar factoren die verband hielden met het schools functioneren. Zo vonden Gatti et al. (2009) geen genderverschillen en leek ook de plaats van het letsel geen voorspellende waarde te hebben inzake de schoolse carrière. Sahmat et al. (2017) verwijzen in hun onderzoek naar een andere studie waarin kinderen met fysieke beperkingen, waaronder spina bifida, onderzocht werden. Zij vonden wel tal van barrières die het moeilijk maken om school te volgen, zoals incontinentieproblemen, afhankelijkheid op vlak van mobiliteit, ontoegankelijke schoolfaciliteiten en maatschappelijke barrières.

5.8 Kwaliteit van leven

De Wereldgezondheidsorganisatie (WHO) definieert kwaliteit van leven als “de perceptie van het individu op zijn positie in het leven, in de context van de cultuur- en waardensystemen waarin hij leeft en in relatie tot zijn doelen, verwachtingen en zorgen” (Ramachandra, Palazzi, Skalsky, Marietti, & Chiang, 2013). Gezondheidsgerelateerde levenskwaliteit (HRQOL) is een onderdeel van dit begrip en geeft aan hoe een individu met een chronische aandoening, zoals spina bifida, de impact van deze aandoening op zijn fysiek en psychosociaal functioneren beoordeelt (Ramachandra et al., 2013).

Algemeen genomen zijn er vele inconsistente bevindingen wat de levenskwaliteit van mensen met spina bifida betreft. Zo concluderen sommige studies dat hun levenskwaliteit lager is dan deze van gezonde mensen (Cornegé-Blokland, Jansen, De Jong-de Vos van Steenwijk, & Poenaru, 2011; Murray et al., 2014; Ramachandra et al., 2013; Wang et al., 2013)²⁰ en dan die van mensen met andere chronische aandoeningen (Murray et al., 2014). Andere onderzoeksresultaten, op basis van zelfgerapporteerde metingen, weerlegden echter een verhoogd risico op lagere levenskwaliteit binnen de spina bifida populatie. (Bellin et al., 2013). Doch lijkt er een trend te bestaan dat spina bifida een negatieve impact heeft op de levenskwaliteit, gezien ook een reviewartikel (Rofail et al., 2014) dit besloot.

Enkele auteurs wagen zich aan mogelijke verklaringen voor dergelijke inconsistenties in de literatuur. Zo zou het gebruik van verschillende vragenlijsten een oorzaak kunnen zijn (Bellin et al., 2013). Een wetenschappelijke studie (Sims-Williams et al., 2017) (N = 66) die

²⁰ Respectievelijk: N = 74; N = 166 (102 patiënten met spina bifida en 64 gezonde kinderen als controlegroep); N = 60 & N = 134 (time 1), maar N = 109 (time 2)

kwaliteit van leven naging bij kinderen in Oeganda, bekwam bijvoorbeeld inconsistente resultaten bij de twee zelf-uitgevoerde metingen naar levenskwaliteit. Men vroeg enerzijds aan kinderen om een score voor HRQOL aan te geven op een visueel analoge schaal gaande van 0 tot 10 en anderzijds nam men ook de HUI3 af. Dit is een vragenlijst die HRQOL in kaart wil brengen door te polsen naar de mogelijkheden van de kinderen op vlak van gezichtsvermogen, communicatie, gehoor en mobiliteit. Aan het einde van het onderzoek bleek dat de scores op de vragenlijst niet in overeenstemming waren met de eigen mening van de kinderen en dat er dus een inconsistentie bestond tussen beide metingen. Hieruit concludeerde men dat het analyseren van de fysieke mogelijkheden aldus niet steeds een goede maat vormt voor QOL.

Canaz, Canaz, Dogan en Alatas (2017) (N = 35) halen leeftijd aan als mogelijke oorzaak van inconsistente bevindingen. Zij stellen vast dat vele QOL-onderzoeken gebruikmaken van zelfgerapporteerde vragenlijsten. Jonge kinderen beoordelen hun leven op grond van hun eigen ervaringen, wat ertoe leidt dat zij hun perceptie op normaliteit invullen aan de hand van hun eigen mogelijkheden. Dat is, volgens de onderzoekers, niet het geval bij adolescenten. Dit kan aldus verklaren waarom de scores voor levenskwaliteit soms lager liggen bij adolescenten met spina bifida dan bij jongere kinderen.

Men bekomt ook vaak inconsistente resultaten wanneer men tracht de verschillende types van spina bifida met elkaar te vergelijken. In een Taiwanese studie (Wang et al., 2013) (N = 60) werd geconcludeerd dat kinderen met spina bifida myelomeningocele lager scoorden op QOL in vergelijking met kinderen met spina bifida lipomyelomeningocele. Een mogelijke verklaring hiervoor zou kunnen zijn dat de eerste groep meer medische problemen ervaart dan de tweede. In dit artikel wordt echter ook vermeld dat een ander onderzoek net het omgekeerde resultaat vond: kinderen met een open vorm van spina bifida hadden een betere kwaliteit van leven dan kinderen met een gesloten vorm van spina bifida.

Tal van wetenschappelijke onderzoeken zijn op zoek gegaan naar factoren die mogelijk samenhangen met HRQOL. Ook dit heeft echter geleid tot inconsistente bevindingen. Een eerste factor die meermaals werd onderzocht, is hydrocephalus. In een Amerikaanse studie (Ramachandra et al., 2013) (N = 74) vond men dat dit een negatieve impact had op de manier waarop kinderen hun fysieke gezondheid beoordelen, maar dit verband lijkt af te zwakken naarmate zij ouder worden. In een Taiwanese studie (Wang et al., 2013) (N = 60) werd ook een negatief verband gevonden tussen hydrocephalus en HRQOL, terwijl dit in een Turkse (Canaz et al., 2017)(N = 35) en een Afrikaanse studie (Cornegé-Blokland et al, 2011) (N = 166) werd tegengesproken. In dit laatste onderzoek werd geopperd

dat kinderen met spina bifida met deze aandoening worden geboren en aldus geen leven zonder beperkingen kennen. Hierdoor zijn ze in feite gewoon geraakt aan de aandoening en zijn bijhorende complicaties.

Een tweede factor die kan samenhangen met HRQOL, is urine-incontinentie. Ook hier zijn de resultaten echter divers. Wetenschappelijke onderzoeken in Turkije (Canaz et al., 2017) (N = 35) en Taiwan (Wang et al., 2013) (N = 60) vonden dat deze medische factor wel degelijk verband hield met HRQOL bij kinderen. Een Zuid-Koreaanse studie vond hetzelfde bij jongvolwassen mannen met spina bifida, weliswaar betreffende QOL (Choi et al., 2016) (N = 47). Sims-Williams et al. (2017) geven in hun studie dan weer aan dat er in het Westen contrasterende bevindingen worden gevonden omtrent bovenstaand verband. Zij gingen dit vervolgens na in Oeganda en vonden een negatieve correlatie (N = 66). Zij suggereren dat de gevolgen van urine-incontinentie zwaarder zijn in landen met een laag gemiddeld inkomen, aangezien de kost van pampers en goede persoonlijke verzorging in dergelijke regio's twee obstakels vormen. Toch blijken er ook tegenstrijdige conclusies te bestaan voor Afrika. Een studie in Kenia leidde immers niet tot hetzelfde verband als in Oeganda (Cornegé-Blokland et al., 2011) (N = 166). Een Amerikaanse studie leverde ook geen dergelijk verband op (Ramachandra et al., 2013) (N = 74). Ramachandra et al. (2013) suggereren dan ook dat het verbeteren van de incontinentieproblemen via een operatie, niet zozeer een verbetering in levenskwaliteit zal opleveren. Het veranderen van één bepalende factor zal, volgens de onderzoekers, niet voldoende zijn om de visie op kwaliteit van leven te veranderen.

In de reeds vernoemde Taiwanese studie werd bovendien niet enkel gekeken naar individuele factoren die verband houden met HRQOL, maar ook geanalyseerd of er een verband bestaat met het aantal medische problemen bij kinderen met spina bifida. Zij vonden hier een negatief verband: hoe meer medische problemen men had, hoe lager de QOL. Andere onderzoeken spreken dit echter opnieuw tegen (Wang et al., 2013) (N = 60).

Ter aanvulling hiervan kunnen we melding maken van een interessante bevinding uit het reeds genoemde QOL-onderzoek in Kenia (N = 166²¹). Men maakte hier gebruik van de 'Evaluation of Individual Quality of Life-Direct Weight'-vragenlijst, waarbij men input verzamelt voor zes domeinen. Op het domein 'gezondheid en ziekte' scoorden kinderen met spina bifida het laagst, maar het was tevens het domein waar zij het minste belang aan hechtten in vergelijking met de andere domeinen. Dit zou dus een mogelijke verklaring

²¹ Zoals reeds eerder aangegeven: 102 patiënten met spina bifida en 64 gezonde kinderen als controlegroep

kunnen zijn voor het gebrek aan verbanden tussen bepaalde medische problemen bij mensen met spina bifida en hun levenskwaliteit. Hierdoor rijst natuurlijk de vraag waaraan kinderen met spina bifida dan wel belang hechten. In bovenstaand onderzoek werd aan het domein 'self-actualisation' veel draagwijdte gegeven. Dit domein omhelst spelen, het beoefenen van hobby's, onafhankelijkheid en religie. In een Nederlandse studie (Schoenmakers et al., 2004) (N = 122) werd eveneens een verband gevonden tussen onafhankelijkheid (in mobiliteit) en kwaliteit van leven. Hier bleek dat jongeren die minder vaak iemands hulp nodig hadden bij mobiliteit, een betere score haalden op QOL. Men bekeek ook nog onafhankelijkheid inzake zelfzorg, maar dit leverde geen verband op met levenskwaliteit.

Een uitzondering op de inconsistentie bij medische factoren, is pijn. Bellin et al. (2013) (N = 48) vonden namelijk dat een verhoogde pijnintensiteit gerelateerd was aan een lage score op zowel het fysieke als het psychologische domein van QOL.

Een vijfde factor die een rol speelt bij HRQOL, is leeftijd, maar opnieuw met inconsistente bevindingen. Soms wordt er geen verband gevonden (Wang et al., 2013), terwijl uit het artikel van Canaz et al. (2017) kan worden afgeleid dat men bij adolescenten met spina bifida soms lagere levenskwaliteit bekommt dan bij jongere kinderen.

Een zesde factor is geslacht. Twee studies vinden geen verband (Cornegé-Blokland et al., 2011; Wang et al., 2013), terwijl één studie wel een correlatie vaststelde (Sims-Williams et al., 2017). Het laatste onderzoek (N = 66) werd gehouden bij kinderen met spina bifida in Oeganda en men concludeerde dat meisjes een hogere kwaliteit van leven hadden dan jongens. Een verklaring zou kunnen zijn dat er hogere verwachtingen worden gesteld naar jongens toe. De inconsistentie tussen de drie onderzoeken zou kunnen te wijten zijn aan een cultuurverschil, maar het onderzoek van Cornegé-Blokland et al. (2011) (N = 166) werd uitgevoerd in Kenia. Wat wel eerder cultuurgebonden is, is het verband tussen grote gezinnen (>7 kinderen) en levenskwaliteit bij kinderen met spina bifida in Afrika. Dit verband werd vastgesteld in het reeds vernoemde Oegandese onderzoek (Sims-Williams et al., 2017). In grote gezinnen is minder geld voorhanden om tegemoet te komen aan de noden van het kind met spina bifida en er werd meermaals verwaarlozing van het kind vastgesteld. Het gevoel om deel uit te maken van een familie, blijkt aldus heel belangrijk te zijn voor QOL bij Afrikaanse kinderen met spina bifida. Enkel in deze studie werd het verband met de grootte van het gezin bestudeerd, omdat de impact ervan, mijns inziens, minder relevant is in het Westen. Grote families met meer dan 7 kinderen komen hier immers veel minder voor. Weliswaar blijkt familiale satisfactie ook belangrijk te zijn bij Amerikaanse kinderen met spina bifida. Het kon namelijk gelinkt worden aan verschillende domeinen (fysiek, psychologisch, ...) van QOL

(Bellin et al., 2013) (N = 48).

Een laatste factor die in de literatuur meermaals werd bekeken, is het seksueel functioneren van volwassenen met spina bifida. Over het algemeen blijkt uit de literatuur dat mensen met spina bifida minder seksueel actief zijn in vergelijking met de gezonde populatie. Uit de reeds aangehaalde studie bleek ook dat 51% van de participanten met spina bifida zijn seksleven als ‘a total failure’ of disfunctioneel omschreef en waarbij 25% zich (heel) ongelukkig voelde met zijn huidig seksleven (cfr. supra). Toch komt in verschillende wetenschappelijke onderzoeken naar voren dat het seksueel functioneren van volwassenen met spina bifida geen verband houdt met kwaliteit van leven (Choi et al., 2016; Linstow et al., 2014). Een mogelijke verklaring hiervoor zou opnieuw kunnen zijn dat men geleerd heeft om met deze problemen om te gaan (Choi et al., 2016). Choi et al. (2016) halen bijvoorbeeld aan dat er evidentie is gevonden voor het feit dat mensen die op een hogere leeftijd te kampen krijgen met een aandoening, meer moeite hebben om zich aan te passen aan hun nieuwe seksuele status dan mensen die hun aandoening reeds op een jongere leeftijd hebben gekregen.

6. Samenvatting

Tabel 2

Een Overzicht van de belangrijkste Conclusies uit de Literatuurstudie

Levensdomein	Conclusies
Huisvesting	Weinig volwassenen met spina bifida wonen zelfstandig (30-40%) Bijna alle adolescenten wonen niet zelfstandig (93-100%) Herzelingen van de shunt vormen een predictor voor het bereiken van een aantal doelstellingen, waaronder zelfstandig wonen
Werk	Weinig adolescenten en jongvolwassenen met spina bifida zijn tewerkgesteld (29-45,8%) Voor volwassenen zijn de resultaten inconsistent: 24-36% versus 54,9-57% Beroepsactieven bekleden vooral de functie van bediende Het percentage volwassenen werkzaam in een beschutte werkplaats schommelt tussen 4-5,88% 5,88% bezocht een dagcentrum, echter gebaseerd op één studie 24% deed vrijwilligerswerk, echter gebaseerd op één studie Predictoren of barrières voor tewerkstelling: gebrek aan bepaalde vaardigheden, transport, mobiliteit, intelligentie, herzelingen van de shunt, motivatie en persoonlijkheid
Ontspanningsactiviteiten en sportparticipatie	Barrières voor (sociale) participatie: incontinentieproblemen en mobiliteit

Jonge kinderen met spina bifida (2-5j) nemen vaker deel aan fysieke activiteiten of handelingen die bepaalde vaardigheden vergen in vergelijking met oudere kinderen.

In de hogere leeftijdscategorie (6-18j) wordt meer tijd gespendeerd aan recreatie en sociale activiteiten dan aan fysieke activiteiten.

Mensen met spina bifida houden er vaak een inactieve levensstijl op na

69% van de adolescenten en jongvolwassenen met spina bifida myelomeningocele doet aan sport (echter gebaseerd op één studie)

Vooraf persoonlijke elementen spelen een rol bij sportparticipatie: plezier, sociale steun, atletische competentie, het verlangen om een beter fysiek voorkomen te hebben en geslacht (j>m)

Mobiliteit

Verbanden tussen het specifiek type spina bifida en plaats van het letsel enerzijds en mobiliteit anderzijds: prognose is slechter voor mensen met spina bifida myelomeningocele of zij met een hoger letsel

Demografische variabelen die samenhangen met mobiliteit: leeftijd en geslacht

Vergelijking tussen mensen die full-time, parttime of geen rolstoel moeten gebruiken: verschil in quality of life, maar gelijke psychische distress.

Betreffende het behalen van een rijbewijs schommelt het percentage tussen 53,57 en 54%

Factoren die hiertoe belangrijk zijn, zijn volharding, motivatie, steun van ouders, familie en vrienden en financiële

ondersteuning. Perceptuele en cognitieve tests hadden geen voorspellende waarde.

Zelfstandigheid

Weinig kinderen met spina bifida bereiken autonomie op vlak van zelfzorg. Het type van spina bifida, plaats van het letsel, mobiliteit, spiersterkte, intelligentie en process skills zijn belangrijke factoren die verband houden met zelfstandigheid .

Een positieve evolutie is weliswaar merkbaar met de leeftijd

Relaties

Kinderen en adolescenten hebben minder vrienden of hun vriendschapsbanden zijn van lagere kwaliteit

Percentage van pesten bedraagt 10,86%, echter gebaseerd op één studie

Spina bifida zorgt voor een familiaal disfunctioneren op vlak van familie cohesie, maar niet op vlak van familiale conflicten

72-76% van de volwassenen met spina bifida heeft geen partnerrelatie of is niet gehuwd

Obstakels bij het aangaan van een partnerrelatie: gebrek aan zelfvertrouwen, het gebruik van een rolstoel, leeftijd, plaats van het letsel en hydrocephalus.

Voor geslacht en urine-incontinentie bestaat inconsistentie.

In vergelijking met gezonde mensen zijn minder mensen met spina bifida seksueel actief. Belangrijke predictoren blijken: plaats van het letsel, urine-incontinentie en geslacht. Alhoewel voor dit laatste opnieuw inconsistente gegevens bestaan.

School

In lage inkomenslanden zitten minder leerlingen met spina bifida in het regulier onderwijs in vergelijking met hoge inkomenslanden: 36% vs 73-76,1%

Groot verschil in percentages betreffende bijzonder onderwijs: 27% (Amerika) versus 9,72% (Australië)

Kwaliteit van leven

Over het algemeen hebben mensen met spina bifida een lagere levenskwaliteit in vergelijking met gezonde mensen of mensen met andere chronische aandoeningen. Sommige studies spreken dit tegen, maar zij vormen een minderheid.

Welke factoren hangen samen met QOL?

Inconsistente gegevens voor hydrocephalus, urine-incontinentie, leeftijd, geslacht en aantal medische problemen.

Consistente gegevens voor pijn, onafhankelijkheid inzake mobiliteit en grote gezinnen (enkel in Afrika!) en seksueel functioneren.

Opm: Per uitzondering van het seksueel functioneren zijn de andere factoren telkens slechts naar voren geschoven door één wetenschappelijk onderzoek.

7. Brug met literatuurstudie

De impact van spina bifida op het dagdagelijks leven is een vrij nieuw onderzoeksdomein. Dit wordt perfect geïllustreerd door het feit dat maar liefst 44 van de 51 artikels uit de literatuurstudie na 2000 werden geschreven. Gelet op de ruime algemene probleemstelling, werden een aantal onderzoeksvragen opgesteld die in totaal zeven levensdomeinen en de kwaliteit van leven in kaart brachten. Enkel deze domeinen en kwaliteit van leven werden nagegaan in de literatuurstudie en het empirisch onderzoek, dat de bevindingen uit de bestaande literatuur wil verifiëren en aanvullen om de impact van de aandoening beter in kaart te brengen. De resultaten hiervan worden beschreven in ‘8.2 Resultatendeel: Deel A’.

Op basis van de literatuurstudie kunnen ook een aantal andere, specifiekere onderzoeksvragen worden opgesteld. Eerst en vooral dient te worden aangestipt dat niet al deze vragen onderzocht konden worden in dit empirisch onderzoek, aangezien de data zich daar niet toe leenden. Omwille van de praktische haalbaarheid werden de vragenlijsten immers opgesteld alvorens de literatuurstudie werd uitgevoerd. Ten tweede was het niet mogelijk om alle (overige) onderzoeksvragen na te gaan, vermits dit onderzoek kadert binnen een masterproef. Daarom werd er uiteindelijk beslist om vier onderzoeksvragen bijkomend te onderzoeken. Deze vier werden zo gekozen, daar ze verband houden met drie verschillende levensdomeinen en kwaliteit van leven. Dit doet ook eer aan de uitgebreidheid van dit masterproefonderwerp. Andere vragen blijven dus onbeantwoord, wat een spijtige zaak is, maar hopelijk kan toekomstig onderzoek hierop een antwoord bieden.

Indien spina bifida werkelijk, zoals verwacht wordt, zijn sporen nalaat in het alledaags leven van de patiënt, kan dit (empirisch) onderzoek zowel een belangrijke klinische als wetenschappelijke bijdrage leveren. Zo kan het bijvoorbeeld zorgen voor een optimalisatie van de hulpverlening en kan het mogelijks de basis vormen voor maatregelen om de impact van de aandoening in de toekomst te verminderen en de levenskwaliteit te verbeteren. Als uit het onderzoek bijvoorbeeld blijkt dat er in het lager onderwijs onvoldoende extra begeleiding wordt gegeven aan kinderen met spina bifida, kan dit voor scholen een extra aandachtspunt zijn en aldus leiden tot een verhoging van de leeransen.

DEEL 3: EMPIRISCH ONDERZOEK

1. Inleiding

Het derde hoofdstuk gaat dieper in op het zelf-uitgevoerde empirisch onderzoek. Eerst volgt een omschrijving van de onderzoeksvragen die hier werden nagegaan, om vervolgens het opzet van dit onderzoek verder toe te lichten. Zo wordt er bijvoorbeeld nader ingegaan op de hoedanigheid van de participanten, het gebruikte materiaal, het verloop van de pilootstudie,... Tot slot sluit dit hoofdstuk af met een resultatensectie.

2. Onderzoeksvragen

2.1 Deel A

Dit empirisch onderzoek wil de bevindingen uit de literatuur opnieuw nagaan en aanvullen in de onderzochte populatie. Dit onderzoek blijft beperkt tot dezelfde levensdomeinen als diegene die de literatuurstudie in kaart bracht. Ook het thema kwaliteit van leven wordt besproken. De brede onderzoeksvragen die reeds vermeld werden in het tweede hoofdstuk van deze masterproef onder “2.2 Onderzoeksvragen” zijn dus ook hier van toepassing.

2.2 Deel B

Na het uitvoeren van de literatuurstudie konden ook een aantal relevante, specifiekere onderzoeksvragen opgesteld worden. Een aantal van hen leenden zich echter niet tot verder onderzoek, aangezien de data daar niet geschikt voor waren. De uitvoering van de literatuurstudie gebeurde immers, omwille van praktische redenen, na de opstelling van de vragenlijsten. Overige onderzoeksvragen konden ook niet allemaal onderzocht worden, gezien dit praktisch niet haalbaar was binnen het bestek van deze masterproef. Uiteindelijk vond aldus enkel van de onderstaande onderzoeksvragen een analyse plaats. Zij werden zo gekozen dat ze betrekking hadden op verschillende levensdomeinen of kwaliteit van leven. Dit doet namelijk eer aan de uitgebreidheid van dit masterproefonderwerp, in tegenstelling tot wanneer de onderzoeksvragen allemaal zouden behoren tot één domein

- Is er een verschil in tewerkstelling tussen enerzijds volwassenen met en anderzijds volwassenen zonder een ventriculo-peritoneale drain?
- Doen jongens met spina bifida meer aan sport dan meisjes met spina bifida?

- Hebben adolescenten met spina bifida (14-18j) een lagere levenskwaliteit dan kinderen (< 14j) met spina bifida ?
- Is er een geslachtsverschil in het kader van het hebben van een partnerrelatie?

2.2.1 Hypotheses

Voor het beantwoorden van bovenstaande onderzoeksvragen met behulp van de eigen ontworpen vragenlijsten zijn concrete hypothesen nodig:

- Minder volwassenen met een ventriculo-peritoneale drain hebben een job op de arbeidsmarkt in vergelijking met volwassenen zonder een ventriculo-peritoneale drain.
- Jongens met spina bifida doen meer aan sport dan meisjes met spina bifida
- Adolescenten met spina bifida (14j+) hebben een lagere totaalscore op de PEDS-QL dan kinderen (< 14j) met spina bifida
- Meer vrouwen dan mannen met spina bifida hebben een partnerrelatie.

3. Participanten

Op 8 augustus 2017 zaten er in totaal 277 patiënten in de spina bifida conventie van het UZ Leuven. Het betrof 165 volwassenen en 112 kinderen. Voor de uitvoering van het onderzoek, werden er een aantal uitsluitingscriteria opgesteld, waardoor niet elke patiënt een vragenlijst kreeg toegestuurd. Patiënten die de Nederlandse taal niet begrepen en/of konden lezen, namen niet deel, evenals patiënten zonder een vast woonadres in België. Tot slot werden ook patiënten die ten tijde van het onderzoek te kampen hadden met persoonlijke problemen, uitgesloten van deelname. De verpleegkundige van het spina bifida team beoordeelde in alle discretie deze situaties.

Uiteindelijk werden 254 patiënten per brief gecontacteerd. Het betrof 156 volwassenen en 98 kinderen. De volwassen patiënten vulden hun vragenlijst zelf in. Indien dit niet mogelijk was, bijvoorbeeld omwille van een beperkt intellectueel vermogen, was het ook mogelijk dat de vragenlijst werd ingevuld samen met de wettelijke voogd(en). Er moest in beide gevallen ook steeds een informed consent ondertekend worden. Wanneer het een vragenlijst voor kinderen betrof, werd deze steeds ingevuld door de wettelijke voogd(en), die ook het informed consent ondertekende(n). Indien het kind binnen het leeftijdsbereik van 12-18 jaar viel, diende het zelf ook zijn schriftelijke toestemming te geven voor het verwerken van de gegevens.

4. Materiaal

In het najaar van 2016 werd een eerste versie van de vragenlijst voor volwassenen opgesteld, waarbij de opgenomen vragen deels gebaseerd waren op wetenschappelijke artikels. Zo vond er een analyse plaats naar de manier waarop eerdere studies specifieke levensdomeinen bevraagd hadden. Vragen uit dergelijke studies die bruikbaar bleken voor het eigen onderzoek, werden vervolgens vertaald naar het Nederlands en opgenomen in de vragenlijst. De geraadpleegde wetenschappelijke artikels konden ook dienen als inspiratiebron. De andere vragen opgenomen in de lijst, zijn opgesteld in overleg met het spina bifida team.

De vragenlijst werd gemaakt met behulp van Survey Monkey²², een elektronisch programma. Hiermee werd vervolgens ook een vragenlijst voor kinderen ontworpen.

Beide vragenlijsten trachtten vooreerst een aantal demografische gegevens in kaart te brengen, zoals geslacht, leeftijd, geboorteland en meest frequent gesproken taal. Ook peilden zij naar enkele medische gegevens en naar de kwaliteit van het leven. Bij volwassenen werd bovendien de maandelijkse financiële ondersteuning bevraagd, teneinde een beter beeld te krijgen van de financiële situatie van participanten.

Bij volwassenen was het eerste bevraagde levensdomein ‘**werk**’, teneinde na te gaan of en in welke mate personen met spina bifida professioneel actief zijn. De beroepsactieve groep diende vervolgens het specifiek uitgevoerde beroep op te geven. Na het doornemen van twee SES-vragenlijsten, werd bovendien een item omtrent het werkgerelateerde stressniveau aan de originele versie van de vragenlijst toegevoegd.

De genoten **opleiding** vormde het tweede bevraagde levensdomein, met oog voor behaalde diploma's en gevolgde studierichtingen in het regulier of bijzonder onderwijs. Ook de duur van de studies en eventuele begeleiding op school werden bevraagd.

Ten derde werd het **sociaal functioneren** nagegaan, met de kwaliteit van familie- en vriendschapsbanden als een belangrijk onderdeel hiervan. Bij volwassenen peilden de vragen specifiek ook naar hun huidige relationele status, kinderwens en seksueel functioneren, terwijl er bij kinderen expliciet gekeken werd naar de problematiek van pesterijen omwille van hun aandoening.

²² Ter verduidelijking werden deze vragenlijsten gemaakt via dit elektronisch programma, maar hierna werd dit niet langer gebruikt in het kader van de afname van deze surveys.

Ook de **vrijtijdsbeleving** bij beide groepen vormde een onderdeel van deze vragenlijsten. Via de bevraging van sport en andere hobby's probeerde de onderzoeker zicht te krijgen op de fysieke activiteit van mensen met een vorm van spina bifida. Tot slot werd er hier ook gekeken naar de mate van deelname aan sociale activiteiten.

Het domein omtrent **woonstatus** kwam slechts beperkt aan bod, met slechts één enkele vraag die peilde naar de woonomstandigheden van de patiënten. Dit heeft onder meer tot doel om na te kijken of volwassen patiënten met een vorm van spina bifida in staat zijn om op zelfstandige basis te wonen.

Vervolgens werd het thema **mobilititeit** in kaart gebracht. Participanten dienden eerst en vooral aan te geven welke hulpmiddelen zij nodig hadden om mobiel(er) te zijn en welke beperkingen en problemen zich, ondanks de aangegeven hulpmiddelen, toch nog voordeden, bijvoorbeeld 'in het bereiken van de bestemming'. Vervolgens beantwoordden patiënten enkele vragen over hun meest gebruikte vervoersmiddel en hun reisgedrag.

Tot slot kwam ook het levensdomein '**zelfstandigheid**' aan bod, met subthema's als zelfzorg, fysieke activiteiten en handelingen gerelateerd aan spina bifida (darmspoeling, sonderen,...).

Bij het onderzoek werden levensdomeinen geselecteerd die alledaags en relevant zijn. Bovendien gaat het om belangrijke thema's, die gemeenschappelijk zijn voor alle participanten. Het feit dat de geselecteerde domeinen zich lenen tot een eenvoudige vraagstelling, speelde ook een rol in de keuze. De opgenomen vragen waren dan ook concreet en eenvoudig, om onduidelijkheid tegen te gaan. Wagner et al. (2015) benadrukten immers reeds het belang van een makkelijk taalgebruik, daar sommige patiënten met spina bifida beperkingen kennen in hun executief functioneren. De onderzoekers merkten daardoor geregeld op dat vragen verkeerd werden geïnterpreteerd, wat incorrecte data opleverde. Om dit zoveel mogelijk te vermijden, koos dit onderzoek overwegend voor meerkeuzevragen. Zo konden participanten de vragenlijst invullen door telkens aan te duiden welke stelling op hen van toepassing was.

Bovenstaande opsomming van levensdomeinen betreft het uiteindelijk ontwerp van de vragenlijst, met toevoeging van een aantal demografische gegevens. Daarnaast zijn er ook nog *quality of life* vragenlijsten toegevoegd, omdat *quality of life*, zeker bij een chronische aandoening, een psychologisch relevant onderwerp is (zie Bijlage 6 en 7). Doordat er belangrijke positieve evoluties hebben plaatsgevonden op niveau van neurochirurgie zijn de mortaliteitscijfers voor spina bifida gedaald. Kinderen met deze chronische ziekte leven langer en daarom is het dus belangrijk om hun kwaliteit van leven in kaart te brengen,

opnieuw bij kinderen en volwassenen (Murray et al., 2014). Voor deze toevoeging werd eerst en vooral de SF-36 doorgenomen en volledig opgenomen in de vragenlijst voor volwassenen met spina bifida. Daarna volgde een toevoeging van enkele vragen uit de WHOQOL-Bref. Voor kinderen werd dan weer de PedsQL-4 opgenomen.

Aan de hand van gesuperviseerde feedback van verschillende medewerkers, psychologen, artsen en een verpleegkundige, kwamen verschillende aanpassingen aan de originele versie van de vragenlijsten tot stand, ook in de formulering van vragen. Ten eerste werd geadviseerd om vragen in verband met demografische variabelen en medische achtergrond te stellen. De vragenlijst breidde zich hierdoor uit met zeven vragen. Bij een van deze vragen werd uiteindelijk één antwoordmogelijkheid vervangen door vijf nieuwe antwoorden en er werd een vraag in verband met de financiële situatie van volwassenen toegevoegd. Het levensdomein werk kreeg twee extra vragen over het aantal werkuren per week en de functie die men bekleedt. Bij het domein omtrent sociaal functioneren kwam een andere volgorde van vragen tot stand, met alle vragen over familie en vrienden als eersten en vervolgens de vragen over het seksueel functioneren. Voor het levensdomein schools functioneren werd één vraag bijkomend opgenomen, namelijk deze die peilt naar de specifieke opleidingsvorm die men heeft gevolgd in het bijzonder onderwijs. Voor het domein mobiliteit kwam er dan weer een toevoeging in de lijst van hulpmiddelen, de Kaye Walker, en konden patiënten voortaan ook meerdere antwoorden bij deze vraag aanduiden. Tot slot werd in gezamenlijke overeenstemming besloten om specifiek de SF-36 (volledig), WHOQOL-BREF (deels) en de PEDS-QL op te nemen als quality of life vragenlijsten. De overige vijf opmerkingen gingen over bepaalde woordkeuzes.

Naast de twee vragenlijsten zijn ook nog een begeleidende brief en verschillende *informed consents* opgesteld (zie Bijlage 8), voor zowel volwassenen, ouders als kinderen (12-18j). De begeleidende brief had tot doel een algemeen kader te creëren bij het onderzoek en praktische uitleg te geven over de documenten die patiënten moesten invullen en terugsturen indien ze wilden deelnemen. De *informed consents* gaven eveneens uitleg over het onderzoek en vroegen anderzijds toestemming om de verkregen gegevens te mogen verwerken.

5. Pilotstudie

In het voorjaar van 2017 werd een pilotstudie afgenomen bij één volwassen vrouw (23j) met spina bifida. Deze feedback heeft uiteindelijk geleid tot verbale aanpassingen en toegevoegde antwoordmogelijkheden.

Daarnaast vond tevens een pilotstudie plaats bij 3 kinderen met spina bifida, twee meisjes (11 en 12j) en een jongen (13j). Bij deze laatste gebeurde het gesprek in aanwezigheid van beide ouders. De vragen werden een voor een overlopen waarbij de ouders en hun zoon aanvullingen of onduidelijkheden konden aangeven, wat leidde tot een aantal aanpassingen op verbaal vlak. Zo moesten bepaalde antwoordmogelijkheden specifiekere worden opgesteld, teneinde de participant toe te laten de vraag makkelijker te beantwoorden. Het gesprek met het elfjarig meisje vond plaats in aanwezigheid van de moeder. Hier werd uiteindelijk beslist om de vragen enkel door te nemen met de moeder omdat het cognitief functioneren van haar dochter beperkt was. Ook hier kwamen enkele opmerkingen over bepaalde verwoordingen of ontbrekende antwoordmogelijkheden. Tot slot vond het gesprek met het tweede meisje plaats in aanwezigheid van de vader. Opnieuw volgde een bespreking van alle vragen, maar opmerkingen bleven uit.

6. Methodologie

De originele versies van de surveys werden in het najaar van 2016 opgesteld. Feedback van verschillende betrokkenen en de uitvoering van een pilotstudie leidden tot een definitieve aanpassing van de surveys. Daarna volgde de opstelling van een begeleidende brief en verschillende *informed consents*, die werden ingestuurd naar de Ethische Commissie van UZ Leuven die uiteindelijk een positief advies gaf.

Nadat alle documenten (vragenlijsten, informed consents en aanspreekbrief) werden opgesteld en goedgekeurd door de Ethische Commissie, kregen 254 patiënten uit de spina bifida conventie van UZ Leuven deze documenten toegestuurd. Het betrof zoals gezegd 156 volwassenen en 98 kinderen. Elke participant die wenste deel te nemen, moest zijn vragenlijst samen met bijhorend(e) *informed consent(s)* opsturen naar UZ Leuven. Met het *informed consent* gaf men ook toestemming voor de verwerking van de gegevens. Indien het een vragenlijst voor een volwassene betrof, diende deze ingevuld te worden door de persoon met spina bifida zelf. Wanneer dit echter niet mogelijk was, kon deze survey ook samen met de wettelijke voogde(n) worden ingevuld. Indien het een vragenlijst voor een kind betrof, werd deze steeds ingevuld door de wettelijke voogd(en), maar als het kind tussen 12 en 18 jaar was,

diende het ook zelf zijn schriftelijke toestemming te geven voor het verwerken van de gegevens.

In het voorjaar van 2018 werden de volwassenen, ouders en kinderen waarvan nog geen respons ontvangen werd, opnieuw benaderd. Dit gebeurde via telefonisch contact of via rechtstreekse aanspreking tijdens de raadpleging. Indien men via telefonisch contact verklaarde alsnog te willen deelnemen, werden de surveys via mail of per brief opgestuurd teneinde de responsgraad te verhogen. Op de raadpleging had men telkens een afgedrukte versie van de vragenlijst ter beschikking, waardoor participanten deze ter plaatse konden invullen. Deze tweede bevraging werd afgesloten in maart 2018.

7. Dataverwerking en statistische analyses

Na het afsluiten van de dataverzameling werden eerst alle benodigde variabelen gecodeerd in IBM SPSS Statistics 25.0, om vervolgens alle datagegevens hierin handmatig te importeren. Er kwamen aldus twee bestanden tot stand, één voor volwassenen met spina bifida en één voor kinderen en adolescenten met spina bifida. Soms werden vragen opengelaten of verkeerd ingevuld (bijvoorbeeld twee antwoordmogelijkheden aanduiden terwijl er slechts één antwoord gevraagd werd), wat leidde tot een aantal ‘missing data’. Deze werden telkens gecodeerd als 999, zodat voor elke vraag de juiste steekproefgrootte berekend kon worden, zeker bij ‘string’ variabelen.

Voor resultatendeel A gebeurde de weergave van de resultaten per levensdomein en dat meestal aan de hand van beschrijvende statistiek, uitgedrukt in percentages. Daarnaast werden voor sommige vragen ook grafische voorstellingen en tabellen opgesteld zodat een nauwkeurige verdeling tot stand kwam. Dit is belangrijk als men informatie wil bekomen over alle antwoordmogelijkheden.

Voor de metingen in resultatendeel B werd telkens gebruik gemaakt van één non-parametrische test, namelijk de Mann-Whitney U Test. Deze keuze werd gemaakt, omdat de te meten variabelen niet normaal verdeeld waren. Dit werd nagegaan via de ‘Skewness toets’. Telkens opnieuw lag het resultaat niet tussen de waarden -1,96 en +1,96. Enige uitzondering bleek hypothese 3 te zijn waar dan ook gekozen werd voor een parametrische ‘independent sample t-toets’ aangezien ook de twee andere assumpties²³ voldaan waren.

Ter opmerking werd de assumptie met betrekking tot gelijke varianties nagegaan via

²³ assumptie 2: beide steekproeven moeten onafhankelijk van elkaar zijn
assumptie 3: varianties van de steekproeven moeten gelijk zijn.

een Levene's test. Deze was uiteindelijk niet significant en daarom werd gekeken naar de resultaten van de t-toets bij 'equal variances assumed'.

Voor alle analyses werd een significantieniveau van 0,05 toegepast.

8. Resultaten²⁴

8.1 Inleiding

In deze resultatensectie volgt een toelichting bij de specifieke resultaten van het zelf uitgevoerde empirische onderzoek. Vooreerst komen de bevindingen voor de verschillende levensdomeinen en kwaliteit van leven aan bod, specifiek bij de groep volwassenen. Hierna volgen deze van de kinderen en adolescenten. Algemene gegevens (respons-rate, geslacht, gemiddelde leeftijd,...) worden in een aparte paragraaf voor beide leeftijdsgroepen beschreven. Bovenstaande behoort allemaal tot ‘8.2 Resultatendeel: Deel A’.

In het tweede luik van deze resultatensectie, “8.3 Resultatendeel: Deel B”, volgt een analyse van de eventuele evidentie voor de vier onderzoeksvragen die werden opgesteld aan de hand van de literatuurstudie.

8.2 Resultatendeel: Deel A

8.2.1 Beschrijvende statistiek voor de volwassenen met spina bifida

8.2.1.1 Algemene gegevens

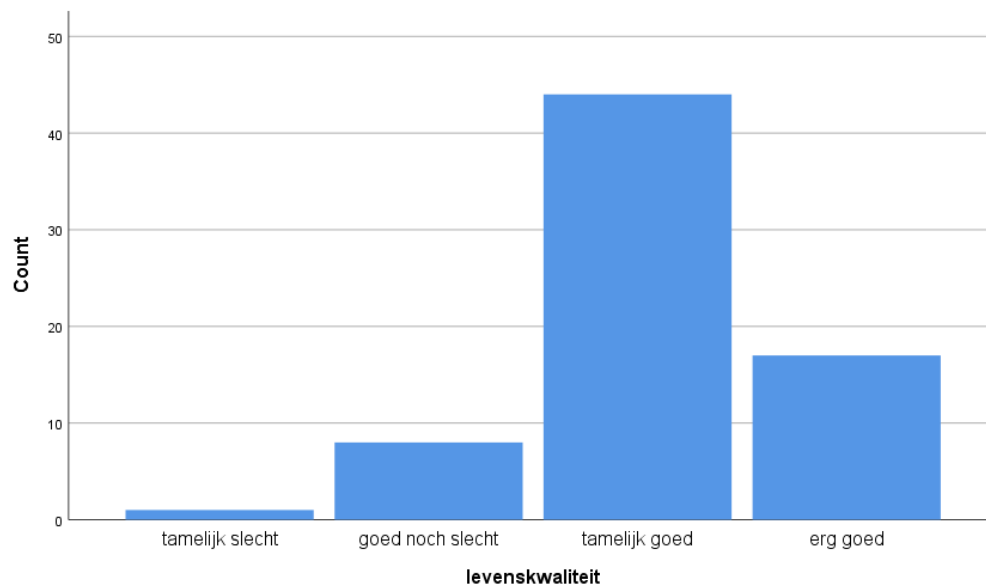
Er werden 72 vragenlijsten geretourneerd door volwassenen met spina bifida. Aldus bedroeg de uiteindelijke response-rate voor deze specifieke leeftijdsgroep 46,15%. Uit de statistische analyse blijkt dat het om 25 mannen en 47 vrouwen ging, waarvan de gemiddelde leeftijd 31,90 jaar bedroeg ($M = 31,90$; $SD = 8,54$). De meerderheid, 68 personen, werd in België geboren. De overige vier participanten gaven Duitsland, Turkije, Rwanda of Griekenland op als geboorteland.

In totaal gaf ongeveer 38% van deze populatie ($N = 71$) aan een ventriculo-peritoneale drain te hebben. Percentages betreffende sonderen en urine-incontinentie lagen zoals verwacht vrij hoog ($N = 71$): respectievelijk 81,69% en 64,78%. Bij mensen die urine-incontinent zijn ($N = 46$), bleek bijna 70% bijkomend stoelgangincontinent. In het kader van mobiliteit ($N = 71$) gaf maar liefst 42,25% aan rolstoelgebonden te zijn, wat verband houdt met de lage percentages die gevonden werden voor respectievelijk binnenshuis en buitenshuis zelfstandig kunnen stappen zonder hulpmiddelen (slechts 39,43% en 35,21%). De meerderheid (64,78%) deed beroep op een kinesist ($N = 71$). Hiernaast bleek 8,45% beroep te doen op een psychiater ($N = 71$). Deze participanten bleken allemaal vrouwen te zijn en 1/3^{de} van hen neemt ook medicatie.

²⁴ Opmerking: Sommige percentages voor welbepaalde variabelen werden in de tekst afgerond om de leesvlotheid te verbeteren. De exacte cijfers worden weergegeven in Bijlage 5.

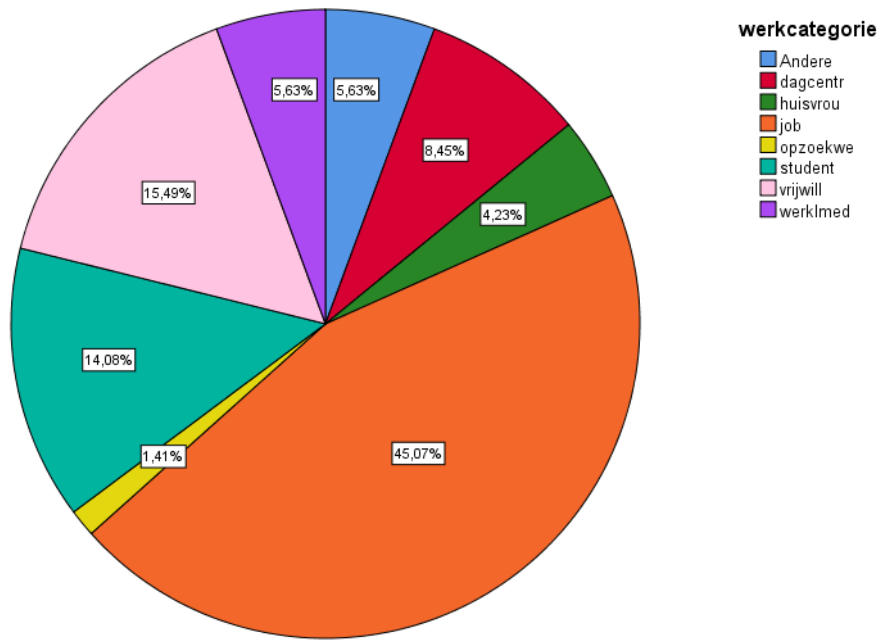
De vraag ‘Hoe zou u uw kwaliteit van leven inschatten?’ werd tevens gesteld. Participanten konden hierbij kiezen uit vijf antwoordmogelijkheden. Figuur 10 geeft een overzicht van deze respons. Er kan besloten worden dat de meeste deelnemers hun kwaliteit van leven als ‘tamelijk goed’ beoordeelden (N = 70). Het antwoord ‘erg slecht’ werd door niemand aangeduid.

Tot slot werd ook de financiële situatie in kaart gebracht. Uit de statistische analyses (N = 72) bleek dat 44,29% een loon kreeg, afkomstig uit een job, en 15,71% een ziekte-uitkering vanwege spina bifida. Bij de resterende 40% werd een andere financiële tegemoetkoming (werkloosheidsuitkering, integratietegemoetkoming, vervangingstegemoetkoming,...) voorzien.



Figuur 10. Overzicht van de ondervonden mate van levenskwaliiteit bij de volwassenen met spina bifida(N = 70)

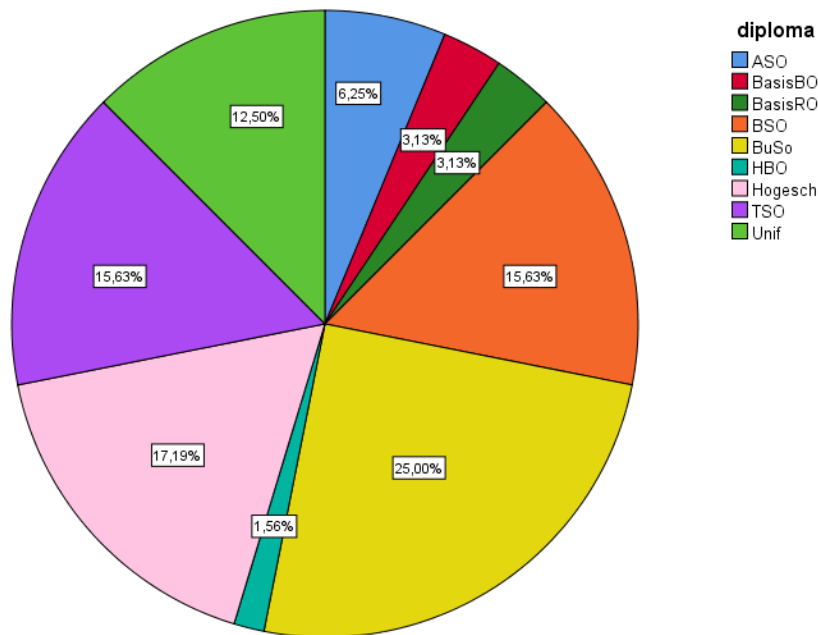
8.2.1.2 Werk



Figuur 11. Overzicht van de verdeling betreffende verschillende arbeidsposities met bijhorende percentages (N = 71)

Uit Figuur 11 blijkt dat bijna de helft van de volwassenen met spina bifida een baan had, waarbij veruit de grootste groep tewerkgesteld werd als bediende (66,67%) (N = 33). Twee op drie participanten gaven echter aan dat hun aandoening invloed had gehad op hun jobkeuze (N = 33). Daarom was het des te meer interessant om te kijken hoe tevreden volwassenen met spina bifida zijn met hun job en in welke mate ze stress ervaren. De meeste vrijwilligers en beroepsbeoefenaars zijn ‘tevreden’ over het werk dat ze momenteel doen (N = 43), maar het merendeel ondervindt hierbij een matig stressniveau (N = 42) (zie Bijlage 1). Er bleek echter geen evidentie te bestaan voor een correlatie tussen de mate van stress op de werkvloer en werktevredenheid ($r = -0,05$, $p = 0,743$). Opvallend was weliswaar dat bijna 12% van de deelnemers problemen van sociale aard ondervond op professioneel gebied (N = 34). Dit kan gaan om stigma’s, vooroordelen, bepaalde houdingen van andere werknemers, ... Ongeveer de helft van de deelnemers werkte full-time (N = 44).

8.2.1.3 Opleiding



Figuur 12. Overzicht van hoogst behaalde diploma bij de volwassenen met spina bifida, weergegeven via percentages (N = 64)

In Figuur 12 worden cijfers getoond betreffende het hoogst behaalde diploma. Het merendeel van de volwassen participanten (64,52%) gaf aan zijn studies binnen de normale tijdsduur te hebben afgerond (N = 62). Bovenstaande percentages tonen aan dat 71,87% een diploma uit het regulier onderwijs behaalde. De overige 28,13% had een diploma van het bijzonder onderwijs. De meeste volwassenen die (eventueel tijdelijk) bijzonder onderwijs volgden, kwamen vooral terecht in OV1²⁵ en OV2²⁶, zo blijkt uit de statistische analyses (N = 18). Ook bij het opleidingsniveau blijkt spina bifida een belangrijke invloed te hebben gehad op de uiteindelijke studiekeuze, althans bij 55,38% van de deelnemers (N = 65).

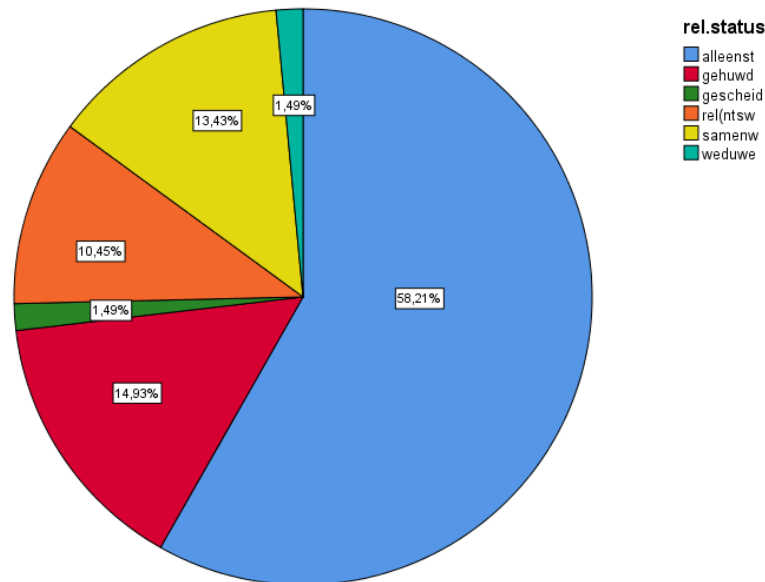
Het onderzoek toonde aan dat bijna 30% van de participanten over een diploma hoger onderwijs beschikte (N = 64), wat geen zeer groot verschil vormt met het desbetreffende percentage dat bij de globale Belgische bevolking (15-64j) werd gevonden in 2015, namelijk 37% (Statistiek Vlaanderen, 2016). Ondanks deze positieve cijfers kwam uit de analyse naar voren dat volwassenen met spina bifida weinig extra ondersteuning genoten tijdens hun

²⁵ Er zaten acht participanten in OV1

²⁶ Er zaten zes participanten in OV2

schoolcarrière. De situatie was het meest ernstig voor het secundair en hoger onderwijs, waar de meerderheid aangaf ‘nooit’ extra begeleiding te hebben ontvangen (zie Bijlage 2). Voor het lager onderwijs liepen de meningen uiteen van ‘nooit’ tot ‘soms’ (zie Bijlage 2).

8.2.1.4 Sociaal functioneren



Figuur 13. Relatieve status van de volwassenen met spina bifida, weergegeven aan de hand van percentages (N = 67)

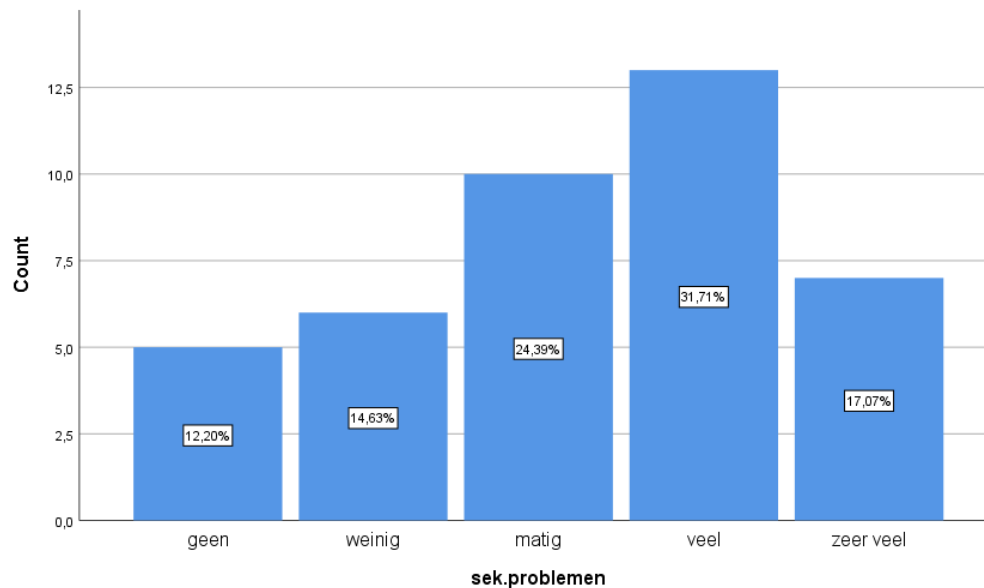
In dit onderzoek gaf 62,32% van alle participanten (N = 69) aan ‘vaak of altijd’ te kunnen rekenen op hun vrienden indien het nodig zou zijn. Toch duidde ook 8,70% ‘nooit’ aan. Het familiaal functioneren (N= 72) leek nog beter, daar bijna 92% weergaf ‘vaak of altijd’ te kunnen rekenen op familie als het nodig zou zijn. Slechts één participant kon ‘nooit’ op familieleden rekenen, zo bleek. Uit een verdere statistische analyse kwam dan ook naar voren dat volwassenen met spina bifida meer konden rekenen op familieleden dan op vrienden ($Z = -4,96; p < 0,05$)²⁷.

Vervolgens kwam uit het onderzoek naar voren dat het merendeel van de volwassen participanten met spina bifida alleenstaand was (zie Figuur 13). Voorts woonde 13,43% samen en betrof het scheidingspercentage 1,49% .

In het kader van het huidig seksueel functioneren gaven 26 participanten weer momenteel niet seksueel actief te zijn (N = 70). Bij de overige 44 bleek respectievelijk 18,2% en 38,6% zeer tevreden en tevreden met zijn huidig seksueel functioneren. Ongeveer 1/5^{de} gaf

²⁷ Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

aan noch tevreden, noch ontevreden te zijn. De overige 15,9% en 6,8% gaven aan respectievelijk niet tevreden en zeer ontevreden te zijn. Daarnaast werd ook gepeild naar de mate waarin men seksuele problemen ondervond door spina bifida. Figuur 14 geeft een overzicht van deze respons. Hieruit kan besloten worden dat de meesten (73,17%) ‘matig tot zeer veel’ problemen ondervonden (N = 41).



Figuur 14. Overzicht van de mate waarin men seksuele problemen ondervindt door spina bifida, weergegeven aan de hand van percentages

8.2.1.5 Vrije tijd

In totaal gaf ongeveer 47% van deze steekproef (N = 72) aan een sport te beoefenen. Verschillende sporten werden vermeld, maar rolstoeldansen en zwemmen waren de meest frequente. De overige 52,8% van de participanten deed dus niet aan sport en daarvan hield ook ongeveer 27% er geen andere hobby op na. In totaal had 64,29% van bijna alle ondervraagden een hobby (N = 70), maar deze bleken eerder van passieve aard, zoals lezen, muziek luisteren, computergebruik,...

Daarnaast gaven participanten aan dat ze doorgaans vaak familie en vrienden bezochten (N = 71) (zie Bijlage 3), maar minder vaak deelnamen aan culturele ($Z = -6,03$; $p < 0,05$) en sociale evenementen ($Z = -5,031$; $p < 0,05$)²⁸. Weliswaar werden er geen tot weinig problemen ondervonden bij deze bezigheden, althans bij 51,4% van de deelnemers. Slechts 1,4% werd geconfronteerd met extreem veel problemen (N = 72). Indien er (al eens) moeilijkheden optraden, rapporteerde 78,57% (N = 56) dat deze van praktische aard waren, zoals de toegang tot gebouwen, ter plaatse geraken,... Problemen van sociale aard werden genoemd bij 23,21% (N = 56). Hierbij ging het om stigma's, houdingen van bepaalde personen,...

8.2.1.6 Huisvesting

Bijna de helft (46,48%) van alle participanten woonde samen met familie. Slechts 26,76% en 16,90% woonde respectievelijk samen met een partner of alleen. Aanvullend woonde een zeer kleine groep (2,82%) weliswaar ook alleen, maar onder supervisie. Tot slot gaf 2,82% aan in een zorgcentrum te verblijven.

8.2.1.7 Mobiliteit

In deze steekproef was ongeveer 1/3^{de} van de participanten in staat om mobiel te zijn zonder hulpmiddelen (N = 72). Specifiek bij vrouwen betrof dit percentage 40,4% terwijl bij mannen was dit beduidend lager, namelijk 24%. Eerder werd reeds vermeld dat bijna 42% van de deelnemers rolstoelgebonden was (cfr. supra). De rolstoel was dan ook het meest gebruikte hulpmiddel, gevolgd door krukken (13,9%) en een driewieler (8,3%) (N = 72). Uit de bevraging bleek dat maar liefst 59,7% van de deelnemers een rolstoel nodig had (N = 72). Andere hulpmiddelen, zoals spalken, een wandelstok, een kaye walker of een looprek/rollator, werden elk afzonderlijk door minder dan 6% gebruikt (N = 72). Niemand maakte gebruik van

²⁸ Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

een runner. Dankzij alle verschillende hulpmiddelen slaagt respectievelijk 36,17% en 44,68% er ‘tamelijk goed’ en ‘erg goed’ in om zich te verplaatsen (N = 47). Slechts 4,25% slaagt er ondanks de hulpmiddelen ‘erg slecht’ in om mobiel te zijn. Indien men toch mobiliteitsproblemen ondervond, situeerden deze zich het meest op de bestemming zelf en hierna in het bereiken van de bestemming ($Z = -2,34$; $p < 0,05$). In vergelijking met deze twee opties werden het minst mobiliteitsproblemen binnenshuis (respectievelijk: $Z = -6,08$; $p < 0,05$; $Z = -4,90$; $p < 0,05$)²⁹ gerapporteerd. Bijna 45% van de deelnemers gaf aan matig beperkt te zijn door mobiliteitsproblemen (N = 58), terwijl 13,79% ‘veel’ of ‘extreem veel’ impact van deze problemen ondervond.

Er werd ook gepeild naar het meest gebruikte vervoersmiddel. Dit bleek voor het merendeel (86,96%) de auto te zijn (N = 69). Meer specifiek gaf 60% van deze participanten (N = 60) aan zelf de wagen te besturen, wat erop wijst dat minimum 60% van de participanten in deze steekproef zijn rijbewijs behaald heeft.

Tot slot gaf 76,81% van de participanten aan te reizen (N = 69). Bij de overige 23,19% werd niet gevraagd naar de specifieke reden waarom men dit niet deed. Dit kan aldus te maken hebben met de aandoening zelf, maar ook met andere redenen (financieel, interesse,...). Op basis van dit onderzoek kan hier geen uitspraak over gedaan worden.

8.2.1.8 Zelfstandigheid

Bij de bevraging naar zelfstandigheid bij dagelijkse activiteiten bleek het merendeel van de participanten compleet onafhankelijk te zijn. Enkel bij poetsen had slechts 32,84% geen assistentie nodig (N = 67). Ook bij winkelen (N = 70), het nemen van het openbaar vervoer (N = 66) en lange afstanden wandelen (N = 53) werd de kaap van 50% niet bereikt.

Bij het vergelijken van de verschillende activiteiten, bleek dat bij eten het hoogste percentage complete zelfstandigheid werd bereikt (83,3%) (N = 72). Ook scheren (N = 52), naar het bed toegaan (N = 70) en sonderen (N = 62) behaalden een hoge score, gaande van 80% tot 82,69%. Bij darmspoelingen was slechts 50% compleet onafhankelijk en gaf bijna 22% aan compleet afhankelijk te zijn (N = 32). Aldus behoren darmspoelingen bij de vier hoogste percentages inzake complete afhankelijkheid, naast poetsen (N = 67) en trappen doen (N = 56). Het nemen van het openbaar vervoer bleek uiteindelijk het moeilijkst om alleen te doen, daar 53,73% maximale assistentie nodig had of compleet afhankelijk was van anderen.

²⁹. Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

In Bijlage 4 wordt een overzicht gegeven van deze percentages per activiteit.

Er werd bij de deelnemers ook gepeild in welke mate ze hun eventuele afhankelijkheid een storende factor vonden in hun leven. Bij 23,07% van de deelnemers was dit zelden het geval, bij 42,31% soms en bij 19,23% vaak (N = 52). De overige 15,38% verdeelde zich gelijk over de antwoordmogelijkheden nooit en altijd.

8.2.1.9 Kwaliteit van leven

Voor het laatste thema geeft Tabel 3 een overzicht van de totaalscore en de gemiddelde scores per subschaal, behaald op de SF-36. De bijhorende steekproefgroottes werden ook steeds vermeld.

Tabel 3

Gemiddelde Totaalscore en Gemiddelden per Subschaal met bijhorende Standaarddeviaties, behaald op de SF-36

Score	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Steekproefgrootte
Totaalscore	77,95	112,33	71
Fysiek functioneren	47,37	35,91	66
Beperkingen op vlak van werk door fysieke problemen (‘Physical role limitations’)	70,22	39,88	68
Lichamelijke pijn	78,99	25,04	72
Perceptie op de algemene gezondheid	60,69	21,63	72
Vitaliteit	67,25	17,71	71
Sociaal functioneren	81,51	24,08	71
Beperkingen op vlak van werk door emotionele problemen (‘Emotional role limitations’)	83,33	32,83	68
Mentale gezondheid	76,44	17,41	71

Deze data werden vergeleken met de gemiddelde scores op de subschalen, gemeten bij

gezonde mensen in Wales (Burholt & Nash, 2011).³⁰ Hieruit bleek dat de participanten met spina bifida een minder goed fysiek functioneren ($t(65) = -6,89$; $p < 0,05$) kenden in vergelijking met bovenstaande gezonde populatie. Zij ondervonden ook meer lichamelijke pijn ($t(71) = 3,01$; $p < 0,05$) en bereikten een minder hoog niveau van vitaliteit ($t(70) = 4,78$; $p < 0,05$). Hun algemene gezondheid bleek ook slechter te zijn ($t(71) = -2,16$; $p < 0,05$)³¹. Op alle andere subschalen werden geen significante verschillen gevonden.

Over het algemeen kan dus besloten worden dat de bevroegde mensen met spina bifida een slechtere fysieke gezondheid hebben in vergelijking met gezonde mensen (uit Wales), daar drie subschalen hierover significant verschilden. Op vlak van mentale gezondheid leek dit niet zozeer het geval te zijn, daar slechts één subschaal ('vitaliteit') een significant contrast opleverde.

Zoals eerder beschreven werden in de uiteindelijke vragenlijst drie vragen van de WHO-QOL survey opgenomen ter aanvulling. Uit analyse van deze vragen kwam ten eerste naar voren dat 55,07% en 15,94% respectievelijk 'tevreden' en 'erg tevreden' was met zichzelf ($N = 69$). Deze lijn kon doorgetrokken worden naar satisfactie met levensomstandigheden, daar 52,17 en 30,43% respectievelijk aangaf tevreden tot erg tevreden te zijn ($N = 69$). Ondanks deze positieve cijfers gaf ongeveer 35% aan 'middelmatig' te genieten van het leven ($N = 68$).

Tot slot werd er gepolst naar de tevredenheid inzake toegang tot de gezondheidsdiensten (in Vlaanderen). Over het algemeen bleek ook dit resultaat positief te zijn, daar 48,57% en 22,86% respectievelijk 'tevreden' tot 'erg tevreden' was.

8.2.2 Beschrijvende statistiek voor de kinderen met spina bifida

8.2.2.1 Algemene gegevens

In totaal werden 48 vragenlijsten teruggezonden, waardoor de uiteindelijke responsrate voor de kinderen en adolescenten met spina bifida 48,98% bedroeg. De surveys waren afkomstig van 27 jongens en 21 meisjes met een gemiddelde leeftijd van 9,45 jaar³² ($M = 9,45$; $SD = 5,50$). Allen werden geboren in België op één kind na, dat in Nederland werd

³⁰ In het artikel van Burholt en Nash (2011) ontbrak een totaalscore voor levenskwaliteit. Er konden dus enkel vergelijkingen gemaakt worden op vlak van de subschalen.

³¹ Deze en bovenstaande resultaten op basis van t-toetsen moeten met enige voorzichtigheid aangenomen worden vermits enkel de subschalen fysiek functioneren, algemene gezondheid en vitaliteit aan de assumptie van normaliteit voldeden.

³² Alle kinderen waren jonger dan 18 jaar op drie kinderen na. Zij waren respectievelijk 18,19 en 20 jaar oud.

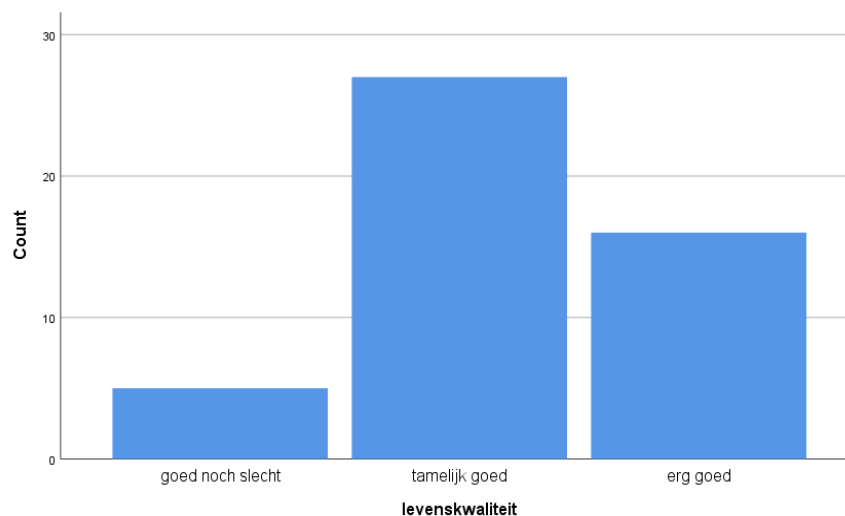
geboren.

Uit de statistische analyses bleek dat 1/3^{de} een ventriculo-peritoneale drain had (N = 48). Sonderen moest bij 83,3% gebeuren, daar 64,6% urine-incontinent was (N = 48). Bij de participanten die urine-incontinent waren (N = 31), was bijna iedereen ook stoelgang incontinent (93,5%).

Inzake mobiliteit is respectievelijk 65,96% en 53,19% in staat binnens- of buitenshuis zelfstandig te stappen zonder hulpmiddelen. Ongeveer 1/5^{de} was rolstoelgebonden (N = 48).

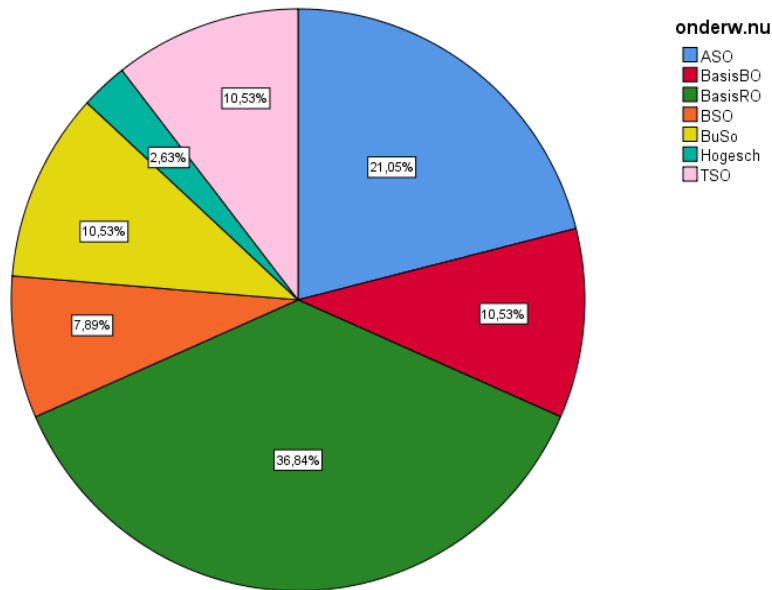
Ook hier deed bijna 69% beroep op externe hulpverlening in de vorm van kinesitherapie, en 8,3% van de participanten ging ook langs bij een psychiater. Meer specifiek waren het drie meisjes en één jongen met een gemiddelde leeftijd van 13,75j. Enkel en alleen de jongen werd ondersteund met medicatie.

Ook hier werd de vraag gesteld: ‘Hoe zou u de kwaliteit van het leven van uw kind inschatten?’ Opnieuw hadden participanten de keuze uit vijf antwoordmogelijkheden, gaande van erg slecht tot erg goed. De meerderheid koos voor ‘tamelijk goed’, terwijl de twee laagste mogelijkheden niet werden aangeduid. Figuur 15 geeft een overzicht van deze respons weer.



Figuur 15. Overzicht van de ondervonden mate van levenskwiteit bij de kinderen en adolescenten met spina bifida (N = 48)

8.2.2.2 Opleiding



Figuur 16. Overzicht van het huidig onderwijsniveau van de kinderen en adolescenten met spina bifida (N = 38)

In Figuur 16 wordt een overzicht gegeven van het huidig onderwijsniveau van de betrokken participanten (N = 38).

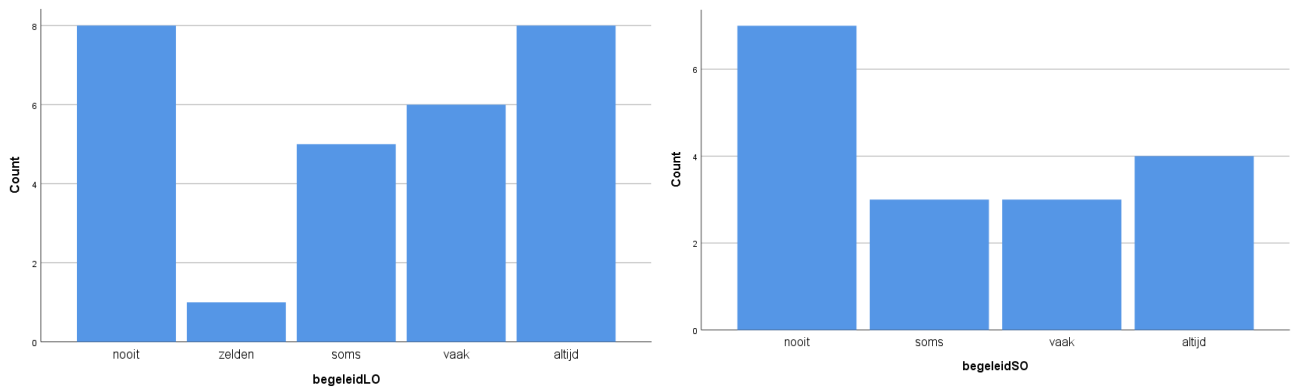
Het merendeel (resp. 91,18% en 79,31%) gaf aan dat de kans hoog was om een diploma voor dit niveau te behalen (N = 34) en had tot nu toe zijn studies binnen de normale tijdsduur afgerond (N = 29).

Uit bovenstaand taartdiagram kan ten eerste worden afgeleid dat de meeste kinderen en adolescenten met spina bifida het regulier onderwijs volgen. Slechts 21,06% volgde les in het bijzonder onderwijs. Uit de statistische analyses (N = 7) bleek bovendien dat het merendeel van zij die deze vorm van onderwijs volgde (85,71%) in OV4 waren terechtgekomen. Vervolgens kon worden vastgesteld dat de participanten die reeds de stap naar het secundair onderwijs hadden gezet, voornamelijk in ASO zaten. Slechts een zeer klein percentage bevond zich reeds in het hoger onderwijs (2,63%), wat mijns inziens te wijten is aan het proefopzet van dit onderzoek. In deze steekproef was de gemiddelde leeftijd immers slechts 9,49 jaar. Vele jongeren kwamen dus nog niet aanmerking voor hoger onderwijs. Bijkomend werden de participanten met spina bifida vanaf 18j beschouwd als volwassenen en kregen zij dus een andere vragenlijst toegestuurd.

Weliswaar bleek spina bifida ook bij deze participanten een belangrijke invloed te hebben gehad op de studiekeuze, althans bij 39,29% (N = 28).

Net zoals bij de volwassenen werd ook hier gevraagd naar eventuele extra begeleiding

die men krijgt/kreeg op de verschillende onderwijsniveaus. Slechts twee participanten gaven een respons betreffende het hoger onderwijs, dus werden deze data buiten beschouwing gelaten. In het lager onderwijs waren de ervaringen zeer verschillend (N = 28), zo blijkt uit het staafdiagram (zie Figuur 17). De figuur voor het secundair onderwijs (N = 17) kent een scheve verdeling met de hoogste respons voor de antwoordmogelijkheid ‘nooit’.



Figuur 17. De mate waarin men extra begeleiding genoot tijdens het lager (links) (N = 28) en secundair (rechts) (N = 17) onderwijs, gemeten bij kinderen en adolescenten met spina bifida

8.2.2.3 Sociaal functioneren

In deze steekproef gaf bijna iedereen (97,83%) aan tevreden of zeer tevreden te zijn met de huidige familiebanden (N = 46). Bij ongeveer 84% was dit ook bij vrienden het geval (N = 44). Net als bij volwassenen, bleek ook hier dat kinderen met spina bifida meer kunnen rekenen op familie dan op vrienden ($Z = -4,10$; $p < 0,05$)³³.

In dit levensdomein werd ook het pestgedrag bevraagd. Liefst 31,71% van de participanten (N = 41) gaf aan slachtoffer te zijn geweest van pesterijen vanwege spina bifida! Daarenboven gaf een kleine 5% en 15,56% in de PEDS-QL aan de afgelopen vier weken respectievelijk vaak en soms geplaagd te worden door andere kinderen.

8.2.2.4 Vrije tijd

In totaal deed 61,70% van de kinderen en adolescenten met spina bifida (N = 47) aan sport. Ook hier werden verschillende sporten aangehaald, maar zwemmen werd het meest

³³ Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

genoemd. De overige 38,3% deed dus niet aan sport en daarvan hield ook 78,57% er geen andere hobby op na. Anderzijds had 46,51% van bijna alle ondervraagden wel een hobby (N = 43), maar het merendeel (N = 16) was ook nu van passieve aard, zoals lezen, voetbal kijken, knutselen... Opvallend was echter dat niemand een hobby vermeldde die te maken had met een computer.

Familiebezoekjes werden frequent vermeld, maar in vergelijking hiermee namen participanten minder deel aan culturele ($Z = -2,85$; $p < 0,05$) en sociale evenementen ($Z = -2,71$; $p < 0,05$). Tevens gingen ze minder frequent langs bij vrienden dan bij familie ($Z = -3,38$; $p < 0,05$)³⁴. Weliswaar werd er door 58,4% matig tot veel problemen ondervonden bij deze bezigheden. De overige 41,6% van de participanten werd met geen of weinig problemen geconfronteerd. Indien er (al eens) moeilijkheden optraden, rapporteerde 62,87% dat deze van praktische aard waren (N = 35), zoals de toegang tot gebouwen, ter plaatse geraken,... Problemen van sociale aard werden gemeld door 1/5^{de} van de participanten (N = 35). Onder deze noemer vallen zaken zoals stigma's, houdingen van bepaalde personen,...

8.2.2.5 Huisvesting

De meerderheid (77,08%) van deze participanten woonde samen met zijn gezin. Een resterende 14,58% woonde afwisselend bij moeder en vader vanwege een echtscheiding. Verblijven op een (semi-) internaat kwamen elk minder dan 3% voor.

8.2.2.6 Mobiliteit

Bij kinderen jonger dan 10 jaar had 52,2% geen hulpmiddelen nodig, terwijl dit 28% bedroeg bij kinderen ouder dan 10 jaar. Voor kinderen en adolescenten samen was dit 40%. Een geslachtsverschil lijkt tevens aanwezig, daar 47,6% van de meisjes en 33,3% van de jongens geen nood had aan hulpmiddelen.

Net zoals bij de volwassenen werd een rolwagen het meest gebruikt in vergelijking met de andere opties. Liefst 43,8% bleek er gebruik van te maken, gevolgd door spalken (31,3%), een driewieler (12,5%) en een Kaye Walker (10,4%). Andere hulpmiddelen, zoals krukken, looprek/rollator en runner, werden elk afzonderlijk door minder dan 7% gebruikt. Niemand maakte gebruik van een wandelstok. Door gebruik te maken van het voor hen belangrijkste hulpmiddel slaagde bijna iedereen (92,31%) van de participanten (N = 26) er 'tamelijk goed' of 'erg goed' in om zich te verplaatsen. Indien men toch mobiliteitsproblemen

³⁴ Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

ondervond, situeerden deze zich in het bereik van de bestemming (N = 26) en op de bestemming zelf (N = 24). Tussen deze twee opties was het verschil echter niet significant ($Z = -0,58$, $p = 0,56$), in tegenstelling tot deze met de optie binnenshuis (resp: $Z = -3,05$; $p < 0,05$; $Z = -3,36$; $p < 0,05$)³⁵. Bij ongeveer 39% van de deelnemers beperkten deze problemen het leven slechts matig (N = 31). Bij 22,58% was er veel invloed en slechts bij 12,90% was er totaal geen impact.

Net zoals bij de volwassenen werden ook hier het belangrijkste vervoersmiddel en het reisgedrag bevestigd. De meeste deelnemers (85%) deden beroep op de auto, terwijl slechts 1/8^{ste} voor het openbaar vervoer koos (N = 40). Eén persoon gaf aan dat de fiets zijn belangrijkste vervoersmiddel was. Overigens reisde 85,11% van deze participanten (N = 47). Opnieuw werd bij diegenen die niet reisden, niet gevraagd naar de specifieke reden waarom men dit niet deed. Dit kan dus te maken hebben met verschillende factoren, waaronder de aandoening zelf. Op basis van dit onderzoek kan hier geen uitspraak over gedaan worden.

8.2.2.7 Zelfstandigheid

In vergelijking met de volwassenen met spina bifida, bereikte over alle dagelijkse activiteiten heen een kleiner percentage van kinderen en adolescenten met spina bifida complete onafhankelijkheid. Dit is een logisch gegeven, gezien hun leeftijd. Het percentage complete zelfstandigheid bij het nemen van het openbaar vervoer, bleek echter niet sterk te verschillen tussen de twee groepen, daar 43,94% van de volwassenen (N = 66) en 43,33% (N = 30) van de kinderen complete zelfstandigheid behaalden. De enige activiteit waar kinderen een hogere graad van onafhankelijkheid bereikten, betrof het wandelen van korte afstanden.

Bij kinderen en adolescenten met spina bifida waren wandelen (korte afstand) (N = 40) en eten (N = 42) de activiteiten waarbij de meeste deelnemers geen hulp van een ander nodig hadden. Het ging om respectievelijk 72,50% en 61,90%. Bij darmspoelingen (N = 21) en sondages lag dit aantal veel lager (N = 35), daar slechts respectievelijk 14,29% en 20% dit volledig zelfstandig kon. Het waren tevens de twee activiteiten met de hoogste percentages op complete afhankelijkheid. In Bijlage 4 wordt overigens een overzicht gegeven van alle percentages per activiteit.

³⁵ Er werd gekozen voor een non-parametrische test, de Wilcoxon Signed Ranks Test, vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd.

8.2.2.8 Kwaliteit van leven

Betreffende het laatste thema geeft Tabel 4 een overzicht van de scores per subschaal en een totaalscore. De bijhorende steekproefgrootte werd ook steeds vermeld.

Tabel 4

Gemiddelde Totaalscore en Gemiddelden per Subschaal met bijhorende Standaarddeviaties, behaald op de PEDS-QL

Scores	Gemiddelde	Standaarddeviatie	Steekproefgrootte
Totaal score	68,88	19,54	43
Fysiek functioneren	64,62	27,38	38
Emotioneel functioneren	66,74	20,98	44
Sociaal functioneren	70,01	24,58	44
Schools functioneren	72,10	18,05	39

Hierna werd een vergelijking met reeds beschikbare data van andere onderzoeken gemaakt waarvoor twee wetenschappelijke artikels werden geraadpleegd. Ten eerste bleek in vergelijking met het onderzoek van Varni, Limbers, en Burwinkle (2007) dat de kinderen met spina bifida in deze steekproef een lagere totaalscore bereikten in vergelijking met gezonde kinderen ($N = 5480$) ($t(42) = -4,64$; $p < 0,05$). In het kader van de subschalen betreffende fysiek ($t(37) = -5,16$; $p < 0,05$), emotioneel ($t(43) = -3,98$; $p < 0,05$), sociaal ($t(43) = -4,09$; $p < 0,05$) en schools ($t(38) = -3,12$; $p < 0,05$) functioneren kon hetzelfde geconcludeerd worden.

De tweede studie die geraadpleegd werd, betrof deze van Ramachandra et al. (2013) (cfr. supra). Zij namen dezelfde vragenlijst af bij 33 kinderen met spina bifida (zelfrapportage) in Amerika. In vergelijking met hen scoorde deze steekproef weliswaar beter op levenskwaliteit ($t(42) = 2,14$; $p < 0,05$). Dit gold ook voor de subschalen fysiek ($t(37) = 4,31$; $p < 0,05$) en schools functioneren ($t(38) = 2,35$; $p < 0,05$). Op de twee andere subschalen scoorden ze minder hoog, maar de verschillen bleken uiteindelijk niet significant.

8.3 Resultatendeel: Deel B

8.3.1 Bespreking van de onderzoeksvragen, gebaseerd op de literatuurstudie

8.3.1.1 Onderzoeksvraag 1

Is er een verschil in tewerkstelling tussen enerzijds volwassenen met en anderzijds volwassenen zonder een ventriculo-peritoneale drain?

Om deze eerste onderzoeksvraag te onderzoeken werden twee groepen met elkaar vergeleken, namelijk volwassenen met en zonder ventriculo-peritoneale drain. Met andere woorden vormden de groepen de onafhankelijke variabele. Betreffende de afhankelijke variabele diende een nieuwe variabele te worden gecreëerd. De waarde 'job op de arbeidsmarkt' werd gecategoriseerd als waarde één, de andere categorieën als waarde nul.

De gemiddelden van deze twee groepen op de afhankelijke variabele werden met elkaar vergeleken aan de hand van een Mann-Whitney U Test vermits aan de assumptie van normaliteit niet voldaan werd. Uiteindelijk bleek in deze steekproef significant minder volwassenen met een ventriculo-peritoneale drain te beschikken over een job op de arbeidsmarkt in vergelijking met volwassenen zonder ($Z = -2,73$; $p < 0,05$). Hypothese 1 werd dus bevestigd.

8.3.1.2 Onderzoeksvraag 2

Doen jongens met spina bifida meer aan sport dan meisjes met spina bifida?

Een Mann-Whitney U Test werd gebruikt om deze onderzoeksvraag statistisch na te gaan vermits aan een assumptie niet voldaan werd, namelijk de scores waren niet normaal verdeeld. Geslacht vormde in deze analyse de onafhankelijk variabele, terwijl sportparticipatie de afhankelijke was.

Uiteindelijk bleek er geen geslachtsverschil op te treden betreffende sportparticipatie bij kinderen en adolescenten met spina bifida ($Z = -0,805$; $p > 0,05$). Dit betekent dat hypothese 2 verworpen dient te worden.

8.3.1.3 Onderzoeksvraag 3

Hebben adolescenten met spina bifida een lagere levenskwaliteit dan kinderen met spina bifida?

Er diende een nieuwe variabele te worden gecreëerd opdat bovenstaande vraag kon onderzocht worden. Zoals reeds eerder vermeld, werd adolescentie hier gedefinieerd vanaf

14-jarige leeftijd. Bij deze werden allen in deze steekproef vanaf 14j gecategoriseerd tot één groep. De andere kinderen vormden de overige groep. De gemiddelde totaalscore op de vragenlijst, PEDS-QL, werd voor beide groepen berekend en met elkaar vergeleken. Uiteindelijk diende er gekeken te worden naar de resultaten van de t-toets bij 'equal variances assumed', gezien de Levene's test.

Er werd bevestiging gevonden voor hypothese 3. Adolescenten (14j+) behaalden een significant lagere score op de PEDS-QL in vergelijking met kinderen ($t(41) = -2,45; p < 0,05$). Dit betekent dus dat zij een lagere kwaliteit van leven rapporteren dan jongere kinderen.

8.3.1.4 Onderzoeksvraag 4

Is er een geslachtsverschil in het kader van het hebben van een partnerrelatie?

Deze laatste onderzoeksvraag werd opnieuw getest aan de hand van een Mann-Whitney U Test omdat de scores niet normaal verdeeld waren. Geslacht betrof de onafhankelijke variabele en het hebben van een partnerrelatie de afhankelijke variabele.

Uiteindelijk werd een significant verschil gevonden, namelijk meer vrouwen met spina bifida dan mannen hadden een partnerrelatie ($Z = -2,10; p < 0,05$). Hypothese vier werd dus ook bevestigd.

DEEL 4: DISCUSSIE

‘Heeft spina bifida een impact op het dagelijks leven van volwassenen, adolescenten en kinderen met deze aandoening?’. Zo luidde de vraagstelling van deze masterproef, die overigens werd beantwoord aan de hand van een uitgebreide literatuurstudie en een empirisch onderzoek. Meer specifiek werden zeven levensdomeinen bij deze leeftijdsgroepen in kaart gebracht. Vanzelfsprekend kon het domein ‘werk’ echter niet bevraagd worden bij adolescenten en kinderen. Bovendien werd levenskwaliteit nog toegevoegd, daar dit een psychologisch relevant thema is en aldus perfect binnen de vraag paste.

Vooraleer verder in te gaan op de specifiekere bevindingen, kan alvast gesteld worden dat de algemene conclusie van dit onderzoek is dat spina bifida wel degelijk zijn sporen nalaat in het alledaagse leven. Er dient weliswaar enige voorzichtigheid in acht te worden genomen bij het interpreteren van bevonden resultaten, daar het empirisch onderzoek een aantal tekortkomingen bevat.

1. Bevindingen

Uit Amerikaanse en Engelse studies blijkt dat 30-40% van de volwassenen met spina bifida zelfstandig woont (Bellin et al., 2012; Lindsay et al., 2016; Roach et al., 2010; Wagner et al., 2015)³⁶. De volwassen participanten in het eigen uitgevoerde empirisch onderzoek deden het weliswaar beter, maar toch behaalde ook hier slechts de helft deze doelstelling. Ter vergelijking: 75,5% van de algemene Belgische bevolking (20-64j) woont in een woning die hij/zij zelf bezit (Eurostat, 2013). Dat percentage ligt aldus gevoelig hoger dan bij volwassenen met spina bifida. Weliswaar moet hierbij in rekening worden gebracht dat het gevoerde empirisch onderzoek personen vanaf 18 jaar heeft geïnccludeerd als volwassenen. Een aantal onder hen gaven aan student te zijn, wat mede zou kunnen verklaren waarom sommigen (nog) niet zelfstandig woonden op het moment van de bevraging. Verschillende hypothesen kunnen trachten het relatief lage percentage te verklaren. Zijn mensen met spina bifida bijvoorbeeld niet in staat om zelfstandig te wonen vanwege hun aandoening op zich? Is het financieel geen haalbare kaart, vermits velen geen partnerrelatie hebben of een job op de arbeidsmarkt? Hebben patiënten moeite met het vinden van een geschikte woning? Voor dit laatste lijkt overigens enige evidentie te bestaan in de literatuur (Lindsay et al., 2016), maar hier is verder onderzoek vereist. Bij kinderen en adolescenten blijkt overigens zowel uit de literatuur (Johnson et al., 2007; Kalucy et al., 1996) als uit het empirisch onderzoek dat bijna

³⁶ Respectievelijk: N = 44; N = 84; N = 61 & N = 72

iedereen bij zijn ouders woont, ongeacht of er nu al dan niet sprake is van een echtscheiding.

Voor het domein rond werk wordt in de literatuur een onderscheid gemaakt tussen jongvolwassenen en volwassenen. In het empirisch onderzoek werd dit niet gedaan, wat de vergelijking uiteraard enigszins bemoeilijkt. Wat de volwassenen betreft, tonen zowel twee besproken studies (Laurence & Beresford, 1976; Wagner et al., 2015)³⁷ als het eigen onderzoek aan dat ongeveer de helft van de volwassenen beschikt over een job op de arbeidsmarkt (45,07%-57%). Andere studies melden echter een lager percentage (24-36%) (Hunt et al., 1999; Jenkinson et al., 2010; Roach et al., 2010)³⁸. Een mogelijke verklaring voor deze inconsistentie is het aantal participanten, geïnccludeerd in deze onderzoeken, die het regulier onderwijs hebben gevolgd. Hoe dan ook zijn al deze percentages vrij laag aangezien in België over het algemeen 72% van de 20 tot 64- jarigen in 2016 een job op de arbeidsmarkt had (Studiedienst Vlaamse regering, 2016).

Vervolgens blijken volwassenen met spina bifida vooral tewerkgesteld te zijn als bediende. Dit komt zowel in de literatuur (Laurence & Beresford, 1976) als uit het empirisch onderzoek naar voren. Twee op de drie participanten in het gevoerde onderzoek gaven bovendien aan dat hun aandoening een invloed had gehad op hun jobkeuze, maar het merendeel was tevreden met zijn huidige job (of vrijwilligerswerk). Dit zou er dus op kunnen wijzen dat patiënten er door hun aandoening niet in slagen hun gewenste baan te vinden, en dus noodgedwongen moeten kiezen voor een andere job, die in de meeste gevallen toch ook tevredenheid biedt. Ondanks deze positieve resultaten worden werknemers met spina bifida geregeld geconfronteerd met struikelblokken op de werkvloer, zoals stress en problemen van sociale aard (stigma's, vooroordelen en bepaalde houdingen van andere werknemers) wat voor werkgevers belangrijke aandachtspunten moeten vormen.

Welke factoren spelen een rol in het al dan niet vinden van een baan? Eerst en vooral blijkt de toegang tot transport en mobiliteit belangrijk (Dorner, 1976; Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016), net zoals IQ (Dorner, 1976; Hunt et al., 1999; Laurence & Beresford, 1976; Roach et al., 2010), motivatie (Hunt et al., 1999; Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016), persoonlijkheid (Laurence & Beresford, 1976; Lindsay et al., 2016) en herzieningen van de shunt (Hunt et al., 1999). Dit empirisch onderzoek toonde ook aan dat minder mensen met een ventriculo-peritoneale drain beschikten over een job op de

³⁷ Respectievelijk: N = 72 & N 51

³⁸ Respectievelijk: N = 57; N = 21 & N = 84

arbeidsmarkt in vergelijking met mensen zonder deze drain. De vraag stelt zich of dit verschil verklaard kan worden door een contrast in cognitieve capaciteiten tussen de twee groepen? Toekomstig onderzoek zal dit verder moeten uitwijzen.

De literatuur (Laurence & Beresford, 1976) (N = 51) en het eigen onderzoek toonden aan dat tussen de 5,88% en 8,45% van de patiënten een dagcentrum bezoekt. Bij het doen van vrijwilligerswerk was er wel een opvallend verschil tussen de literatuur en het eigen onderzoek: slechts 15,49% in de eigen steekproef versus 24% in een Engelse steekproef te Liverpool (N = 21) (Jenkinson et al., 2010). Deze gegevens zijn dus gebaseerd op telkens één studie. Verder onderzoek is dus nodig om te kijken of er effectief zo'n grote kloof bestaat.

Vervolgens komen we bij het domein rond vrijetijdsbesteding, waar blijkt dat mobiliteit en incontinentieproblemen belangrijke barrières vormen (Dicianno, Gaines et al., 2009; Fischer et al., 2015; Lindsay, 2014). De literatuur laat bijvoorbeeld zien dat vele jongeren hun vrijetijdsbesteding aanpassen aan hun incontinentieproblemen (Lindsay, 2014). Zowel voor hun zelfstandigheid als om te kunnen participeren is het dan ook belangrijk dat kinderen en jongeren (6-12j) eigenhandig leren te sonderen, zodat hun mogelijkheid tot participatie vergroot. Gelet op het uitdagend karakter van dit proces, is het belangrijk dat ouders hun kinderen hierbij goed ondersteunen en motiveren. De literatuur laat ook zien dat 69% van de adolescenten en jongvolwassenen aan sport doen (Buffart, van der Ploeg et al., 2008) (N = 51). In het gevoerde onderzoek bij kinderen en adolescenten bedroeg dit ongeveer 61,70%. Ter vergelijking: bij Belgische adolescenten in het algemeen (15-17j) liep dit aantal in 2014 op tot 83,70% (Scheerder, Theeboom, Willem, Borgers, & Nols, 2014). Opnieuw scoort de populatie met spina bifida aldus beduidend lager. Op dit vlak kwam het onderzoek trouwens tot twee problematische bevindingen. Ten eerste viel op dat het merendeel van de kinderen en jongeren die geen sport beoefenden, er ook geen andere hobby op na hielden. Ten tweede bleken de hobby's die werden opgegeven eerder van passieve aard te zijn. In dit empirisch onderzoek werd tot slot geen evidentie gevonden voor het feit dat meisjes met spina bifida minder zouden sporten dan jongens.

Bij volwassenen blijkt, uit het eigen onderzoek, 47,2% aan sport te doen, in vergelijking met 64,2% bij de algemene Belgische bevolking (Studiedienst Vlaamse regering, 2016). Al deze bevindingen lijken er op te wijzen dat mensen met spina bifida er eerder een inactieve levensstijl op nahouden in vergelijking met gezonde leeftijdsgenoten. Gelet op het belang van sporten voor de gezondheid, moet hier in de toekomst dan ook meer aandacht voor

zijn. Zo zouden hulpverleners (zoals kinesisten, psychologen,...) de sportparticipatie bijvoorbeeld in kaart kunnen brengen en mensen met spina bifida begeleiden in hun zoektocht naar een geschikte sport. Tijdens deze begeleiding dient er voldoende aandacht te zijn voor interesses, daar plezierbeleving aan sport aanleiding geeft tot nog meer sporten bij jongeren met spina bifida (Buffart, van der Ploeg et al., 2008). Uit de literatuur valt tot slot af te leiden dat sporten eerder een keuze is en niet zozeer een kwestie van niet kunnen (Buffart, van der Ploeg et al., 2008).

In de literatuur wordt een progressieve daling in mobiliteit geschetst naarmate de leeftijd vordert (Johnson et al., 2007; Schechter et al., 2015). Zo zouden meer mensen met spina bifida vanaf de late kindertijd, adolescentie en jongvolwassenheid beroep moeten doen op een rolstoel of een combinatie van verschillende hulpmiddelen. Het empirisch onderzoek treedt bovenstaande trend bij, daar 52,2% van de kinderen jonger dan 10j geen hulpmiddelen nodig heeft terwijl dit percentage daalt naar 28% voor kinderen ouder dan 10j. Dit onderzoek kon nog een stap verder gaan en toonde ook aan dat er nog een zeer lichte daling blijkt te zijn rond de overgang naar volwassenheid. Ongeveer 40% van de participanten in de groep van kinderen én adolescenten gaven immers aan geen gebruik te moeten maken van hulpmiddelen, terwijl dit percentage bij volwassenen verder daalde en slechts 34,70% bedroeg. Uit de literatuur komt bovendien naar voren dat de score bij vrouwen beter zou zijn dan bij mannen (Schechter et al., 2015), wat gesteund wordt door het eigen onderzoek waar 33,3% jongens versus 47,6% meisjes aangaf geen hulpmiddelen nodig te hebben. Bij volwassenen bedroegen deze percentages voor vrouwen en mannen respectievelijk 40,4% versus 24%. Toekomstig onderzoek zou kunnen analyseren wat dit mobiliteitsverschil bij beide geslachten kan verklaren, want tot op heden is hier weinig duidelijkheid over. Wordt het bijvoorbeeld veroorzaakt door hormonale verschillen? Ligt de verklaring verscholen in de anatomie?

Gelet op de hoge percentages die gebruik dienen te maken van hulpmiddelen, kan er geconcludeerd worden dat spina bifida steevast een invloed heeft op de mobiliteit van de patiënten. Doch lukt het de meeste participanten tamelijk goed tot erg goed om zich te verplaatsen met het voor hen belangrijkste hulpmiddel, zo blijkt uit het eigen onderzoek. Er kan dus besloten worden dat men er, door het ontwikkelen van ondersteunende apparatuur, in slaagt de mobiliteitssituatie van mensen met spina bifida te verbeteren. Het meest gebruikte hulpmiddel voor de twee bevraagde leeftijdscategorieën blijkt trouwens een rolstoel te zijn.

Als er mobiliteitsproblemen worden ondervonden, situeren deze zich overigens vooral op de bestemming zelf, zoals door moeilijk toegankelijke gebouwen. Dit blijkt zowel uit het eigen als een Zweeds onderzoek, vernoemd in het artikel van Johnson et al. (2007). Bij het bereiken van een bestemming en vooral binnenshuis verloopt alles een stuk vlotter, aldus het eigen onderzoek. Daarenboven trachten volwassenen met spina bifida hun mobiliteit nog te verbeteren door het behalen van een rijbewijs. Zo blijkt uit de bevraging en de literatuur (Roach et al., 2010; Simms, 2009) ³⁹dat respectievelijk minimum 60% en 50% van de (jong)volwassenen dit behaald heeft. Hiertoe spelen eerder persoonlijke factoren (motivatie, volharding bij het leren rijden,...) een rol en niet zozeer de intellectuele factoren (perceptueel en cognitief) (Simms, 2009).

Bijkomend werden er in de literatuur nog verbanden gevonden tussen het type van spina bifida (Chang et al., 2008; Schechter et al., 2015; Tsai et al., 2002) en de plaats van het letsel (Chang et al., 2008; Dicianno, Bellin et al., 2009; Roach et al., 2010; Sahmat et al., 2017; Tsai et al., 2002) enerzijds en mobiliteit anderzijds. Zo lijken mensen met spina bifida myelomeningocele en mensen met een hoger letsel over een slechtere prognose te beschikken.

De literatuur toont heel algemeen aan dat kinderen en adolescenten minder autonomie bereiken op het vlak van zelfzorg (Holmbeck & Devine, 2010; Lindsay, 2014; Schoenmakers et al., 2004; Sirzai et al., 2014; Tsai et al., 2002) maar er wordt niet verder ingezoomd op specifieke activiteiten, in tegenstelling tot in het eigen onderzoek. Wandelen en eten waren daarbij de activiteiten waarbij de meeste deelnemers geen hulp van een ander nodig hadden. Bij het zelfstandig managen van hun aandoening, meer specifiek bij sonderen en darmspoelingen, werden de hoogste cijfers (en dus complete afhankelijkheid) behaald. Dit vormt een zeer belangrijk aandachtspunt voor ouders, daar een verhoging van het zelfmanagement van de aandoening bij jongvolwassenen omgekeerd evenredig is met depressieve symptomen (Bellin et al., 2012). Zoals hierboven reeds geschetst bij participatie is het dus opnieuw belangrijk dat ouders hun kinderen met spina bifida zo snel mogelijk leren hun aandoening op zelfstandige manier te managen, net omdat dit zo belangrijk is voor hun participatie, zelfstandigheid en mentale gezondheid. Een belangrijke beperking in het eigen onderzoek is dat er geen vergelijking kon worden gemaakt met een gezonde normgroep. Het is dus moeilijk vast te stellen waar kinderen met spina bifida, op vlak van zelfstandigheid, vooral verschillen van gezonde kinderen. Toekomstig onderzoek zou dit verder kunnen uitklaren en kan zo een nuttige bijdrage leveren aan ouders in het kader van opvoeding.

³⁹ Respectievelijk: N = 84 & N = 28

Weliswaar is er wel een positieve evolutie merkbaar naar volwassenheid toe, aldus de literatuur (Kalucy et al., 1996) en dit wetenschappelijk onderzoek. In vergelijking met kinderen en adolescenten bereikten namelijk een groter percentage volwassenen complete onafhankelijkheid, bekeken over alle dagelijkse activiteiten heen, aldus het eigen onderzoek. Bij het vergelijken van de verschillende activiteiten, specifiek voor hen, bleek eten het hoogste percentage aan complete zelfstandigheid te bereiken. Ook scheren, naar het bed toegaan en sonderen behaalden een hoge score. Dit laatste wijst er dus ook op dat het zelfmanagement van de aandoening verbetert, hoewel bij darmspoelingen slechts 50% compleet onafhankelijk was. Ook poetsen, trappen doen en het nemen van het openbaar vervoer bleken moeilijk.

Op sociaal en relationeel vlak komt de literatuur met een aantal negatieve bevindingen. Zo blijkt dat kinderen en adolescenten met spina bifida minder vrienden hebben en dat hun vriendschapsbanden van lagere kwaliteit zijn (Essner & Holmbeck, 2010; Essner et al., 2014; Holmbeck & Devine, 2010; Kalucy et al., 1996; Lindsay, 2014; Wagner et al., 2015). Ze zouden tevens minder sociaal contact met vrienden hebben buiten de schoolmuren (Holmbeck & Devine, 2010). Het zelf gevoerde empirisch onderzoek kan weinig bijdrage leveren aan deze bevinding. Er werd immers enkel de tevredenheid met huidige vriendschapsbanden in kaart gebracht, wat voor het merendeel overigens positief was. Dit doet dus vermoeden dat kinderen met spina bifida tevreden zijn met de vrienden die ze hebben, ondanks het feit dat het er niet veel zijn. Doch moet enige voorzichtigheid aan de dag worden gelegd bij aanname van deze conclusie. Het kan namelijk ook zijn dat deze vragen gebiased werden beantwoord. Zo zouden sommige ouders eventueel de situatie van hun kind beter kunnen hebben voorgesteld dan dat ze werkelijk is. In dit empirisch onderzoek werd overigens niet bevraagd in welke mate mensen met spina bifida het internet gebruiken om vrienden te ontmoeten. Hiervoor kan verwezen worden naar Betz, Smith, Macias, en Bui (2014) (N = 50), die onderzoek gedaan hebben naar het internetgebruik bij adolescenten met spina bifida en vaststelden dat de meerderheid meer dan twee uur per dag doorbrengt op het internet. Het merendeel gebruikt het vooral voor schoolwerk, het beluisteren van muziek en gamen, maar 63% gaf ook aan het te gebruiken om vrienden te ontmoeten. Ter aanvulling was het voor de onderzoekers verbazingwekkend om vast te stellen dat de meeste adolescenten het internet nog nooit hadden gebruikt om informatie op te zoeken over hun aandoening zelf. Toekomstig onderzoek zou het internetgebruik bij adolescenten ook in kaart kunnen brengen.

Ten tweede blijkt de sociale aanvaarding ten aanzien van kinderen en adolescenten

met spina bifida niet goed. Uitgaande van de literatuur bedraagt het percentage pesterijen 10,86% (Dorner, 1976). Uit het zelf uitgevoerde wetenschappelijk onderzoek blijkt maar liefst 31,71% van de participanten slachtoffer te zijn geweest van pesterijen vanwege spina bifida. Dit zijn vrij hoge cijfers, daar 17 procent van de betrokken leerlingen (N = 560) in het secundair onderwijs in Vlaanderen (Leuven en Antwerpen) aangaf gepest te worden, aldus het empirisch onderzoek van een andere masterproef (Lebbe & Glorie, 2012). Dit vormt dan ook een groot aandachtspunt voor het Vlaams onderwijs.

Ten derde stellen Holmbeck en Devine (2010) in hun reviewartikel vast dat spina bifida zorgt voor een familiaal disfunctioneren op vlak van familie cohesie, vooral bij gezinnen met een lage socio-economische status. Het empirisch onderzoek spreekt deze bevinding eerder tegen, daar het merendeel van de volwassenen weergaf ‘vaak of altijd’ te kunnen rekenen op familie als het nodig zou zijn. Ook in de groep van kinderen en adolescenten bleek het merendeel tevreden of zeer tevreden te zijn met de huidige familiebanden. Al moet wel enige voorzichtigheid aan de dag gelegd worden bij het aannemen van deze bevinding vermits de ouders/voogden de vragenlijst hebben ingevuld en dus niet het kind zelf!

Ten vierde beschikt het merendeel van de volwassenen met spina bifida niet over een partnerrelatie, aldus de literatuur (72-76%) (Linstow et al., 2014; Roach et al., 2010; Verhoef et al., 2005)⁴⁰.en het empirisch onderzoek (58%). Het percentage inzake samenwonen schommelt tussen 14-17% en dat van echtscheidingen rond 1,50-8%, zo blijkt opnieuw uit zowel de literatuur (Linstow et al., 2014; Roach et al., 2010;)⁴¹.als het empirisch onderzoek. Welke obstakels doen zich voor bij het aangaan van een partnerrelatie? Uit de literatuur komen alvast inconsistente resultaten naar voren voor urine-incontinentie (Gatti et al., 2009; Linstow et al., 2014; Verhoef et al., 2005) en geslacht (Gatti et al., 2009; Linstow et al., 2014). Het eigen empirisch onderzoek toonde ook een geslachtsverschil aan, namelijk dat meer vrouwen met spina bifida een partnerrelatie hebben in vergelijking met mannen. Voorts worden factoren zoals hydrocephalus (Verhoef et al., 2005), gebrek aan zelfvertrouwen (Verhoef et al., 2005), het gebruik van een rolstoel (Verhoef et al., 2005), leeftijd (Gatti et al., 2009) en plaats van het letsel (Gatti et al., 2009) telkens door één studie benoemd als mogelijke factoren die een rol spelen.

Tot slot toont de literatuur (Choi et al., 2016; Verhoef et al., 2005) en dit empirisch

⁴⁰ Respectievelijk: N = 84; N = 53 & N = 157

⁴¹ Respectievelijk: N = 84 & N = 53

onderzoek dat een groot percentage aan volwassenen met spina bifida niet seksueel actief is. Van zij die wel seksueel actief zijn, beschreef 51% van de participanten in het onderzoek van Linstow et al. (2014) zijn seksleven als een total failure waarbij 25% zich (heel) ongelukkig voelde met zijn huidig seksleven. Dit gold zowel voor vrouwen als voor mannen. In het eigen empirisch onderzoek bleek respectievelijk 18,2% en 38,6% van de volwassenen die seksueel actief waren zeer tevreden en tevreden met zijn huidig seksueel functioneren. Ongeveer 1/5^{de} gaf aan noch tevreden, noch ontevreden te zijn. De overige 15,9% en 6,8% gaven aan respectievelijk niet tevreden en zeer ontevreden te zijn. De meesten (73,17%) ondervonden ook matig tot zeer veel seksuele problemen door spina bifida.

Wat opleiding betreft, toont de literatuur een groot verschil aan tussen lage en hoge inkomenslanden. In Oeganda (Sims- Williams et al., 2017) (N = 62) en Maleisië (Sahmat et al., 2017) (N = 86) volgt namelijk 36% het regulier onderwijs terwijl dit percentage dubbel zo hoog ligt in Australië (Kalucy et al., 1996) (N = 72) en Amerika (Johnson et al., 2007) (N = 348). Ook dit empirisch onderzoek kan aan deze laatste lijst worden toegevoegd. Een interessante bevinding is wel dat er een groot contrast opduikt binnen deze hoge inkomenslanden wanneer er gekeken wordt naar bijzonder onderwijs. In het eigen empirisch onderzoek lag het percentage op 28,13% voor volwassenen en 21,06% voor kinderen en adolescenten, wat overigens ongeveer in lijn ligt met het percentage van een Amerikaanse studie (Johnson et al., 2007). Australië daarentegen scoort lager, met slechts 9,72% (Kalucy et al., 1996). Dit laatste percentage is echter gebaseerd op één studie. Toekomstig onderzoek zou kunnen uitwijzen of er daadwerkelijk zo'n grote kloof bestaat tussen hoge inkomenslanden en zou, indien dit het geval blijkt te zijn, een nuttige bijdrage kunnen leveren aan het Vlaams bijzonder onderwijs.

Het eigen onderzoek toonde ook aan dat 29,69% van de participanten over een diploma hoger onderwijs beschikte, wat geen zeer groot verschil vormt met het desbetreffende percentage dat bij de globale Belgische bevolking (15-64j) werd gevonden, namelijk 37% (Statistiek Vlaanderen, 2015).

Twee eerder negatieve bevindingen uit het onderzoek zijn ten eerste de hoge percentages, zowel bij volwassenen (55,38%) als kinderen (39,29%), die aangeven dat spina bifida een invloed heeft gehad op hun studiekeuze. Ten tweede geniet men ook van weinig extra ondersteuning in het onderwijs. De situatie is het meest problematisch voor het secundair en hoger onderwijs, waar het merendeel van de bevraagden aangaf nooit begeleiding te hebben ontvangen. Voor het lager onderwijs zijn de meningen verdeeld.

Waarom krijgen mensen met spina bifida geen extra begeleiding? Vormt het geen haalbare kaart voor leerkrachten? Zijn leerkrachten niet op de hoogte van het feit dat het schools functioneren moeilijk loopt als de leerling geen hulp vraagt? Zou deze extra begeleiding de invloed van spina bifida op het schools functioneren deels kunnen verminderen, bijvoorbeeld op vlak van studiekeuze?

Uit al het voorgaande kan aldus geconcludeerd worden dat spina bifida een chronische aandoening is die duidelijk zijn sporen nalaat op verschillende levensdomeinen. Deze vaststelling maakt het interessant om na te gaan hoe het gesteld is met de levenskwaliteit van personen die lijden aan spina bifida. Uit de literatuur komt vooreerst vaak naar voren dat zij over een lagere kwaliteit van leven beschikken in vergelijking met gezonde leeftijdsgenoten (Cornegé-Blokland et al., 2011; Murray et al., 2014; Ramachandra et al., 2013; Wang et al., 2013). Er bestaan andersluidende resultaten, maar die vormen eerder een minderheid (Bellin et al., 2013). Ook in het eigen onderzoek scoren kinderen en adolescenten lager in vergelijking met gezonde leeftijdsgenoten, met significante verschillen in de subschalen omtrent het fysiek, emotioneel, sociaal en schools functioneren. Bij de leeftijdsgroep volwassenen blijkt dat de bevroegde mensen met spina bifida een slechtere fysieke gezondheid hebben in vergelijking met gezonde mensen (uit Wales), daar drie subschalen (algemene gezondheid, lichamelijke pijn en fysiek functioneren) hierover significant verschilden. Op vlak van mentale gezondheid leek dit niet zozeer het geval te zijn, daar slechts één subschaal ('vitaliteit') een significant contrast opleverde.

Ten tweede blijkt dat kinderen met spina bifida myelomeningocele lager scoren op QOL dan kinderen met spina bifida lipomyelomeningocele, aldus de literatuur (Wang et al., 2013). Opnieuw bestaat hieromtrent inconsistentie, aldus een ander onderzoek dat wordt vermeld in het artikel van Wang et al. (2013).

Tal van wetenschappelijke onderzoeken zijn op zoek gegaan naar factoren die mogelijks samenhangen met HRQOL, maar ook dit leidde tot inconsistente bevindingen voor hydrocephalus (Canaz et al., 2017; Cornegé-Blokland et al., 2011; Ramachandra et al., 2013; Wang et al., 2013), urine-incontinentie (Canaz et al., 2017; Choi et al., 2016; Cornegé-Blokland et al., 2011; Ramachandra et al., 2013; Sims-Williams et al., 2017; Wang et al., 2013), het aantal medische problemen (Wang et al., 2013), geslacht (Cornegé-Blokland et al., 2011; Sims-Williams et al., 2017; Wang et al., 2013) en leeftijd (Canaz et al., 2017; Cornegé-Blokland et al., 2011; Wang et al., 2013). Wat dit laatste betreft, toont het eigen onderzoek aan dat adolescenten (+14j) een lagere QOL hebben dan jongere kinderen (<14j). Toekomstig

onderzoek is dus noodzakelijk om deze resultaten te valideren of te falsificeren. Consistente bevindingen worden wel gevonden voor seksueel functioneren (geen verband met QOL) (Choi et al., 2016; Linstow et al., 2014) en pijn (negatief verband met QOL) (Bellin et al., 2013). De vraag rijst ook of onderzoeken zich moeten specificeren op telkens één factor in plaats van multifactorieel te kijken. Ramachandra et al. (2013) stellen namelijk dat één bepalende factor niet voldoende zal zijn om de visie op kwaliteit van leven te veranderen bij mensen met spina bifida.

2. Beperkingen

Het uitgevoerde empirisch onderzoek is onderhevig aan een aantal beperkingen waarmee rekening moet worden gehouden bij het analyseren van de resultaten.

Een eerste beperking heeft betrekking op het gebruikte meetinstrument. Er werd gekozen voor een vragenlijst, omdat de spina bifida conventie, die wordt opgevolgd in UZ Leuven, te groot bleek om individuele interviews af te nemen. Het afnemen van een vragenlijst is erg efficiënt en brengt bovendien de nodige structuur in de antwoorden, wat vergelijkingen makkelijker maakt. Een nadeel is wel dat er geen extra uitleg kon worden gevraagd bij bepaalde antwoorden. Dit was achteraf bekeken nuttig geweest bij een aantal bevindingen, zoals bij huisvesting, waar vele volwassenen niet zelfstandig bleken te wonen, maar waar de reden hiervoor niet kon bevestigd worden. Bij interviews was dit wel mogelijk geweest en kon er ook toelichting worden gegeven bij eventueel onduidelijke vragen. Gelet op de cognitieve problemen bij sommige patiënten had dit ondersteunend kunnen zijn.

Een tweede beperking situeert zich op vlak van methodologie. Er bestaat namelijk de mogelijkheid dat er in dit onderzoek een selectiebias aanwezig is, daar diegene die hebben deelgenomen aan dit onderzoek mogelijks ook beter functioneren.

Ten derde maakte dit onderzoek gebruik van zelf-rapportage. Er dient rekening te worden gehouden met het feit dat men de vragenlijst mogelijks gebiased heeft ingevuld, bijvoorbeeld door de eigen situatie beter voor te stellen dan ze in werkelijkheid is. Sociale wenselijkheid kan hierbij ook een rol spelen.

Ten vierde behoorden alle participanten tot de spina bifida conventie van UZ Leuven. Hierdoor is het mogelijk dat de bevindingen van dit onderzoek niet representatief zijn voor de hele spina bifida populatie in België. Ook kunnen er andere resultaten worden bekomen in andere landen vanwege culturele verschillen.

Ten vijfde hebben de ouders of de wettelijke voogd(en) van de kinderen en adolescenten met spina bifida de vragenlijst ingevuld en dus niet het kind of de adolescent zelf. De vraag rijst dan ook of de visie van ouders overeenkomt met die van hun eigen kinderen.

Tot slot dient aangestipt te worden dat dit onderzoek gebaseerd is op eerder kleine steekproeven, zeker wat de groep kinderen en adolescenten betreft.

3. Toekomstig onderzoek

Het thema van deze masterproef heeft betrekking op een vrij nieuw onderzoeksdomein. Dit blijkt – zoals eerder aangehaald - uit het gegeven dat het merendeel

van de artikels uit de literatuurstudie na het millennium geschreven zijn. Een nieuw domein betekent echter ook dat veel vragen nog onbeantwoord zijn en in de toekomst nog verder dienen te worden onderzocht, waartoe reeds in paragraaf 9.1 enkele suggesties werden gedaan. De meeste artikels, geïnccludeerd in de literatuurstudie, en dit empirisch onderzoek richten zich op beschrijvende statistiek. Er is dan ook nood aan toekomstig onderzoek dat deze bevindingen verder valideert of falsifieert. Echter moet er, naar mijn mening, ook aandacht worden besteed aan verklaringen voor deze resultaten. Er dient met andere woorden onderzoek te gebeuren dat zich richt op onderliggende factoren en bepaalde oorzakelijke verbanden in kaart brengt. Zo wordt bijvoorbeeld een geslachtsverschil gevonden voor mobiliteit. Wat verklaart dit verschil? Er kan ook onderzocht worden of de onderliggende oorzaak een onveranderlijke factor betreft, zoals anatomie, of net niet. In geval van het laatste kan dan getracht worden het contrast eventueel te verkleinen. Op die manier kan verder onderzoek een nuttige bijdrage leveren aan de maatschappij en/of de klinische wereld.

Naast verklarend onderzoek is er ook nood aan meer longitudinale studies. Dit is nog niet vaak gedaan in dit domein, waar doorgaans onderzoek wordt verricht bij een welbepaalde leeftijdsgroep op één specifiek tijdstip. Het eigen empirisch onderzoek had wel twee verschillende leeftijdsgroepen en probeerde verbanden te leggen door vergelijkingen te maken tussen bevindingen van beide groepen, maar het zou ook nuttig zijn om te kijken hoe de effecten bij hetzelfde individu over de tijd heen evolueren. Hierdoor kan de impact van spina bifida chronologisch en zeer gedetailleerd in kaart worden gebracht.

Tot slot was het in deze masterproef niet praktisch haalbaar om ook de impact van spina bifida op de mentale gezondheid na te gaan. Het past ook niet binnen de algemene vraagstelling, waar de nadruk wordt gelegd op dagelijks leven. Desalniettemin is het een zeer belangrijk thema, zeker gezien het verhoogd risico op internaliserende problemen bij adolescenten met spina bifida (Essner et al, 2010 & Holmbeck et al, 2010). Verder onderzoek hierover, zeker in België, is hoogst noodzakelijk.

CONCLUSIE

De centrale vraag in deze masterproef betrof de impact van spina bifida op het dagelijks leven van zowel volwassenen als adolescenten en kinderen die lijden aan de aandoening. Er werden een uitgebreide literatuurstudie én een eigen empirisch onderzoek uitgevoerd om deze impact aan de hand van zeven levensdomeinen en kwaliteit van leven in kaart te brengen. Aan het einde van deze masterproef kan er geconcludeerd worden dat deze chronische aandoening wel degelijk zijn sporen nalaat op professioneel gebied, schools functioneren, sociaal functioneren, mobiliteit, zelfstandigheid, woonstatus en vrijetijdsbesteding en dit alles zowel bij volwassenen als kinderen en adolescenten. Tevens beschikken alle bevraagde groepen over een lagere levenskwaliteit. Dit onderzoek levert op die manier een bijdrage aan dit erg interessante en nieuwe onderzoeksdomein. Vele vragen moeten echter nog beantwoord worden, waardoor toekomstig onderzoek hoogstnoodzakelijk is.

REFERENTIELIJST

1. A.G.C Schoenmakers, M., F De Groot, J., W Gorter, J., L.M. Hillaert, J., J.M. Helders, P., & Takken, T. (2009, 7 juli). Muscle strength, aerobic capacity and physical activity in independent ambulating children with lumbosacral spina bifida. Geraadpleegd van <https://www-tandfonline-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.1080/09638280801923235?needAccess=true>
2. B Feuchtbaum, L., J Currier, R., Riggle, S., Roberson, M., W Lorey, F., & C Cunningham, G. (1999). Neural Tube Defect Prevalence in California (1990-1994): Eliciting Patterns by Type of Defect and Maternal Race/Ethnicity. Geraadpleegd van <https://www-liebertpub-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.1089/109065799316572>
3. B Murray, C., N Holmbeck, G., M Ros, A., M Flores, D., A Mir, S., & W Varni, J. (2014, 19 oktober). A Longitudinal Examination of Health-Related Quality of Life in Children and Adolescents With Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://academic-oup-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/jpepsy/article/40/4/419/887935>
4. B Song, R., N Glass, E., & Kent, M. (2016, maart). Spina Bifida, Meningomyelocele, and Meningocele. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S0195561615001643/1-s2.0-S0195561615001643-main.pdf?_tid=7015c113-2b53-452a-ae0b-712bf9efdf4b&acdnat=1529946678_2eddc692dc809bd81ad8b5b89e933f94
5. Broere, G., Von der Dunk, M. G. D., Oosting-de-Boer, H., Rootlieb, A. J. F., & De Voogt, H. J. (1983). *Omgaan met Spina Bifida*. Meppel, Nederland: Infopers.
6. Burholt, V., & Nash, P. (2011, 9 februari). Short Form 36 (SF-36) Health Survey Questionnaire: normative data for Wales. Geraadpleegd van <https://academic-oup-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/jpubhealth/article/33/4/587/1565751>
7. Burke, R., S Liptak, G., & The Council on Children With Disabilities. (2011, 28 november). Providing a Primary Care Medical Home for Children. Geraadpleegd van <http://pediatrics.aappublications.org/content/pediatrics/128/6/e1645.full.pdf>

8. C Findley, J., V Agre, R., & Habeck, V. (1987). Ambulation in the Adolescent with Myelomeningocele I. Early Childhood Predictors. Geraadpleegd van https://www.researchgate.net/publication/19852510_Ambulation_in_the_adolescent_with_myelomeningocele_I_Early_childhood_predictors

9. Canaz, H., Canaz, G., Dogan, I., & Alatas, I. (2017, 27 juni). Health-related quality of life in non-paraplegic (ambulatory) children with myelomeningocele. Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs00381-017-3494-y.pdf>

10. Chang, C. K., Wong, T. T., Huang, B. S., Chan, R. C., & Yang, T. F. (2008, 4 augustus). Spinal Dysraphism: A Cross-sectional and Retrospective Multidisciplinary Clinic-based Study. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S1726490108701588/1-s2.0-S1726490108701588-main.pdf?_tid=51168744-2041-44ee-97ef-8947d0c48d46&acdnat=1529685523_af2ebef95d0e7e81b42de9a7c6708486

11. Cornegé-Blokland, E., Jansen, H. E., De Jong-de Vos van Steenwijk, C. C. E., & Poenaru, D. (2011, januari). Quality of life of children with spina bifida in Kenya is not related to the degree of the spinal defects. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/epdf/10.1111/j.1365-3156.2010.02680.x>

12. D Botto, L., A Moore, C., J Khoury, M., & D Erickson, J. (1999, 11 november). Neural-Tube Defects. Geraadpleegd van <https://www-nejm-org.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.1056/NEJM199911113412006>

13. D Jenkinson, M., Campbell, S., Hayhurst, C., Clark, S., Kandasamy, J., K Lee, M., . . . L Mallucci, C. (2010, 31 december). Cognitive and functional outcome in spina bifida-Chiari II malformation. Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs00381-010-1368-7.pdf>

14. De Ruyk, L., Haeve, J., & Mertens, L. (2014). Validering van een Quality of Life Vragenlijst voor Spina Bifida Patienten. Geraadpleegd van https://lib.ugent.be/fulltxt/RUG01/002/163/891/RUG01-002163891_2014_0001_AC.pdf

15. Dennis, M., M Fletcher, J., Rogers, T., Hetherington, R., & J Francis, D. (2001, 16 januari). Object-based and action-based visual perception in children with spina bifida and hydrocephalus. Geraadpleegd van https://www-cambridge-org.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/core/services/aop-cambridge-core/content/view/DF0E16453ABE27F5D369CE6C008EE736/S1355617702811092a.pdf/objectbased_and_actionbased_visual_perception_in_children_with_spina_bifida_and_hydr
16. Dicianno, B. E., Bellin, M. H., & Zabel, A. T. (2009, 12 december). Spina Bifida and Mobility in the Transition Years. Geraadpleegd van <https://pdfs.semanticscholar.org/308c/1da97f9b41b3d671672496799c1b53d13117.pdf>
17. Dicianno, B. E., Gaines, A., Collins, D. M., & Lee, S. (2009, 7 juli). Mobility, Assistive Technology Use, and Social Integration Among Adults with Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19542778>
18. Dorner, S. (1976). Adolescents with spina bifida: How they see their situation. Geraadpleegd op 4 april 2018, van <https://adc.bmj.com/content/archdischild/51/6/439.full.pdf>
19. E Mitchell, L., S Adzick, N., Melchionne, J., S Pasquariello, P., N Sutton, L., & S Whitehead, A. (2004, 20 november). Spina bifida. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S014067360417445X/1-s2.0-S014067360417445X-main.pdf?_tid=3c12f720-97cd-47f9-9afc-6b06c10cc66d&acdnt=1533048587_1b8f79daf2d931bd7f6cddb6bedbd8f7
20. Eggink, A. (2012). Foetale therapie voor spina bifida. Geraadpleegd van <https://www.ntvg.nl/artikelen/foetale-therapie-voor-spina-bifida/volledig>
21. Eubanks, J. D., & Cheruvu, V. K. (2009, 1 juli). Prevalence of sacral spina bifida occulta and its relationship to age, sex, race, and the sacral table angle: an anatomic, osteologic study of three thousand one hundred specimens. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/19564762>
22. Fischer, N., Church, P., Lyons, J., & McPherson, A. C. (2015, 29 maart). A qualitative exploration of the experiences of children with spina bifida and their parents around

incontinence and social participation. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/epdf/10.1111/cch.12257>

23. Gatti, C., D R, C., Ferrari, A., Casolari, E., Casadio, G., & Scire, G. (2009, oktober). Predictors of Successful Sexual Partnering of Adults With Spina Bifida. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S0022534709003930/1-s2.0-S0022534709003930-main.pdf?_tid=e892b3e3-0fde-4762-9bb9-6d80bd3f31e2&acdnat=1529920656_62a07a9137c3370676930355d1c8f50d

24. H Bellin, M., Dosa, N., Zabel, A., Aparicio, E., E Dicianno, B., & Osteen, P. (2012, 12 juli). Self-Management, Satisfaction With Family Functioning, and the Course of Psychological Symptoms in Emerging Adults With Spina Bifida. Geraadpleegd van https://watermark.silverchair.com/jss095.pdf?token=AQECAHi208BE49Ooan9khhW_Ercy7Dm3ZL_9Cf3qfKAc485ysgAAAbcwggGzBgkqhkiG9w0BBwagggGkMIIBoAIBADCCAZkGCSqGSib3DQEHATAeBglghkgBZQMEAS4wEQQM_rn1QkporA5f5mnwAgEQgIIBanJ1TU_JUvh1QZi67lOCu2h4_wyWGAGlO5XrldVh_L9TSLv2dGbzT5XGHc_EjTJ83ofTE_eohIC87eHTJWi9z9omgdgU8XNaloav_mKRe6fcMa7m1JqMUPwRHZh2tss0Jf1TxOVcGz2x2Auq9ETIDGkwYqusWQyW6WtEE8offAzYx1mZKacCg8iMDCgJPKZO27PIIYj81zmzthBRNBhchPNX9Gul3mjoZpPn83LjGKyWM_gZLTKnmvtJM4R_2UNdUh9_ESRg2S4Xiezk7Q2yMJMw_bIfp8_mHiWK2gSH0z9YIDJ1FarwYz5q_a1jbnO-hIhM4fIznvtTWef2hqS1QNiRSvbhRpxFU3Nc-6-zOKR_NotJgpRgIvfd8KDe5fdHtREZGNhOkGhN7VePyJOgWHFH-tyjh7sCUEfAILFzCUs0UwvrST5ue06p4Y8GL_El0nH8e7M3Rox4zPtVdMTJZNFeWvPXopzK8mV1

25. H Bellin, M., E Dicianno, B., Osteen, P., Dosa, N., Aparicio, E., Braun, P., & A Zabel, T. (2013). Family Satisfaction, Pain, and Quality-of-Life in Emerging Adults with Spina Bifida: A Longitudinal Analysis. Geraadpleegd van http://www.theshinelibrary.org/content/publications%20_documents/Jou213.pdf

26. H Bellin, M., Zabel, A., E Dicianno, B., Levey, E., Garver, K., Linroth, R., & Braun, P. (2009, 30 oktober). Correlates of Depressive and Anxiety Symptoms in Young Adults with Spina Bifida. Geraadpleegd van https://watermark.silverchair.com/jsp094.pdf?token=AQECAHi208BE49Ooan9khhW_Ercy7

Dm3ZL_9Cf3qfKAc485ysgAAAaUwggGhBkgqhkIG9w0BBwagggGSMIIBjgIBADCCAYc
GCSqGSIb3DQEHATAeBglghkgBZQMEAS4wEQQMolFpm4RCpOhqSAz_AgEQgIIBW
HHFmbnY38Ra8EE-
rF6ay_ZV06pkRFsKBRMKJ8iaNxKxZmHydzEXtWwllXgEQ5PJjQ2YTErQ7piHOHZ6Pj
VDs7CWyJ73hh_dn8q91lxAqrrQgErMj7VSQVIZTY0QZulaLcE74t_6SpoYnpx3_I_HuFjH
RQZ9qmVx-IUXdBmEyhKbHn_iuuihiK8Y9CIm0MDTNhrbt0uq-Z-
zvJHb5RCoijYflQyT0BRqjqWWUTACBKTQtP9kehe3qIJJo5tmmwTfNuF3CZx0HNYqHuth
g0--
g4sFV0VN_xtFhBgHVbw_NT883Owkj424Sti3ecdknz7arM_Bv101SKy5ZeEOAI9Z6ByDf
Cgw-
Ysr2WqaLAYLW1hWFLqk3EPDABbCc2FZ0n4miLkc2m8jFTqTdmvGAldn9_LF4ePFPeT
HqnVzPLYrrixRtxkrxpsb73FnJNqKTUbxZsIh3eJoi8wW

27. H Kelly, E., Altiok, H., A Gorzkowski, J., R Abrams, J., & C Vogel, L. (2010, 30 november). How Does Participation of Youth With Spina Bifida Vary by Age. Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs11999-010-1693-x.pdf>

28. Hoppenbrouwers, K., Roelants, M., Guérin, C., Van Leeuwen, K., Desoete, A., & Wiersema, J. R. (2010). Preventie van spina bifida en andere neuralebuisdefecten door foliumzuursuppletie tijdens de zwangerschap. Geraadpleegd van <https://www.kindengezin.be/img/foliumzuursuppletie.pdf>

29. J Sims-Williams, H., P Sims-Williams, H., M Kabachelor, E., & C Warf, B. (2017, 10 mei). Quality of life among children with spina bifida in Uganda. Geraadpleegd van <https://adc-bmj-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/archdischild/102/11/1057.full.pdf>

30. K Choi, E., Ji, Y., & W Han, S. (2016, 11 november). Sexual Function and Quality of Life in Young Men With Spina Bifida: Could It Be Neglected Aspects in Clinical Practice? Geraadpleegd van <https://www-sciencedirect-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/science/article/pii/S0090429517301644>

31. Kalucy, M., Bower, C., & Stanley, F. (1996, april). School-aged children with spina bifida in Western Australia--parental perspectives on functional outcome. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary.wiley.com/doi/full/10.1111/j.1469-8749.1996.tb12098.x>

32. L Betz, C., A Smith, K., Macias, K., & Bui, K. (2014, augustus). Exploration of Internet Use: Profile And Preferences of Transition-Aged Adolescents with Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://search-proquest-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/docview/1564429350/fulltextPDF/5AD9DF679DC246A1PQ/1?accountid=17215>
33. L Johnson, K., Dudgeon, B., Kuehn, C., & Walker, W. (2007, februari). Assistive Technology Use Among Adolescents and Young Adults With Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://ajph-aphapublications-org.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.2105/AJPH.2004.050955>
34. Lebbe, G., & Glorie, N. (2012). *Pesten in het secundair onderwijs in Vlaanderen. Invloed van het klasklimaat*. KU Leuven, Leuven, België. Geraadpleegd van http://depot.lias.be.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/delivery/DeliveryManagerServlet?dps_pid=IE774851
35. Lindsay, S. (2014). A Qualitative Synthesis of Adolescents Experiences of Living With Spina Bifida. Geraadpleegd van <http://journals.sagepub.com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.1177/1049732314546558>
36. Lindsay, S., C McPherson, A., & Maxwell, J. (2016, 17 maart). Perspectives of school-work transitions among youth with spina bifida, their parents and health care providers. Geraadpleegd van <https://www-tandfonline-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.3109/09638288.2016.1153161?needAccess=true>
37. Linstow, M., Biering-Sorensen, I., Liebach, A., Lind, M., Seitzberg, A., Bolling Hansen, R., & Biering-Sorensen, F. (2014, 25 april). Spina Bifida and Sexuality. Geraadpleegd van <http://docserver.ingentaconnect.com/deliver/connect/mjl/16501977/v46n9/s10.pdf?expires=1529695984&id=0000&titleid=1029&checksum=C59B91E3F210EF11ABF0C000A2C33066>

38. M Buffart, L., J van den Berg-Emons, R., Burdorf, A., G Janssen, W., J Stam, H., & E Roebroek, M. (2008, 2 oktober). Cardiovascular Disease Risk Factors and the Relationships With Physical Activity, Aerobic Fitness, and Body Fat in Adolescents and Young Adults With Myelomeningocele. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S0003999308005492/1-s2.0-S0003999308005492-main.pdf?_tid=d7cc23f2-101c-4e97-abe4-40742fae70d2&acdnat=1529684691_220dc7ae20b3f74ba929de6d98bac84e
39. M Buffart, L., P van der Ploeg, H., E Bauman, A., W Van Asbeck, F., J Stam, H., E Roebroek, M., & J.G van den Berg-Emons, R. (2008, 5 mei). Sports participation in adolescents and young adults with myelomeningocele and its role in total physical activity behaviour and fitness. Geraadpleegd van <https://medicaljournals.se/jrm/content/abstract/10.2340/16501977-0239>
40. M Crytzer, T., E Dicianno, B., & Kapoor, R. (2013, 29 september). Physical Activity, Exercise, and Health-related Measures of Fitness in Adults With Spina Bifida: A Review of the Literature. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S193414821300364X/1-s2.0-S193414821300364X-main.pdf?_tid=54a43096-75f9-4a30-b8b2-4f59d506b605&acdnat=1529698765_a5221ca93d5fc1529c99fc79a1875593
41. M Fletcher, J., & J Brei, T. (2011, 1 maart). Introduction: Spina Bifida-A Multidisciplinary Perspective. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/abs/10.1002/ddrr.101>
42. M Hoffer, M., Feiwell, E., Perry, R., Perry, J., & Bonnett, C. (1973, januari). Functional Ambulation in Patients with Myelomeningocele. Geraadpleegd van <http://citeseerx.ist.psu.edu/viewdoc/download?doi=10.1.1.854.8641&rep=rep1&type=pdf>
43. M Hunt, G., Oakeshott, P., & Kerry, S. (1999, 16 april). Link between the CSF shunt and achievement in adults with spina bifida. Geraadpleegd op 4 april 2018, van <https://jnnp.bmj.com/content/jnnp/67/5/591.full.pdf>
44. M Laurence, K., & Beresford, A. (1976). Degree of physical handicap, education, and occupation of 51 adults with spina bifida. Geraadpleegd van <http://jech.bmj.com/content/jech/30/3/197.full.pdf>

45. M Rose, B., & N Holmbeck, G. (2007). Attention and Executive Functions in Adolescents with Spina Bifida. Geraadpleegd van https://watermark.silverchair.com/jsm042.pdf?token=AQECAHi208BE49Ooan9kkhW_Ercy7Dm3ZL_9Cf3qfKAc485ysgAAAbgwgG0BgkqhkiG9w0BBwagggGIMIBoQIBADCCAZoGCSqGSIb3DQEHATAeBglghkgBZQMEAS4wEQQMiwfzw1RIV9jk5i-QAgEQgIIBa7YtTk0_hyzyhhHH-vSjiq0Mu1gYMUhBemHUPrx0e3najxfgB9PzXa8JZbQpepfx_ohTzuakLEd68IjBLfEAkqwCR5gYW6kfaEhOEG_Xa17007xsfvM-rEKHuTaIadid8L1Gmo8lkBBBtC9Da9yvEvre9qgQJNTzhKeCJIW8ymsE0XBY8QjPItpHPCFaku7GxhWKpuM097OoSV_zc45q4HSbWmuDKkti9bHvJYXPruziBxC8Agt7sJWXkHRLcqtZG4kjNByGBCGfP_JJs5HKmxZm69ZW8EsVj5mjLEV_Fc8_OunISeixxPMfqpIY81KX20GekaMExpFvztw_ApAdxznLOBEtL0Ip5J0M2RQ7xuhkny_wEucHMGBz4Abiu11AE0F51QLTxmTWp75k7_QTQvC_ZaBiEj2LEf2AUGn-wD2pFM_cwa000UnuLhRJZYhAEVP5bAj3tYuSisBFbSYH6ySozxy-v9K_iwA
46. Marques, A., Maldonado, I., Peralta, M., & Santos, S. (2015). Exploring psychosocial correlates of physical activity among children and adolescents with spina bifida. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S1936657414000910/1-s2.0-S1936657414000910-main.pdf?_tid=7d7b8505-4925-4910-84ff-f894b9084a0e&acdnat=1529691178_c0ead44a5db19dff29e65799308d8b6c
47. Nederlandse vereniging voor neurochirurgie. (z.j.). Spina bifida (open rug). Geraadpleegd van <https://www.nvvn.org/patienteninfo/wervelkolom-en-ruggenmerg/spina-bifida-open-rug/>
48. Nelen, V., Coenen, M., D'Hooge, K., Hermans, A., Paulussen, M., Thys, G., & Van de Mierop, E. (2015). Registratie van aangeboren afwijkingen. Geraadpleegd van http://www.beshg.be/download/guidelines/Eurocat_rapport_2015.pdf
49. Neurochirurgie genk. (z.j.). spina bifida (open rug). Geraadpleegd van <http://www.neurochirurgie-genk.be/ziektebeelden/pediatische-aandoeningen/spina-bifida-open-rug/>

50. N Holmbeck, G., & A Devine, K. (2010, 26 februari). Psychosocial and Family Functioning In Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/epdf/10.1002/ddrr.90>
51. N Williams, E., S Broughton, N., & B Menelaus, M. (1999). Age-related walking in children with spina bifida. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/epdf/10.1111/j.1469-8749.1999.tb00636.x>
52. Oakeshott, P., Hunt, G., Poulton, A., & Reid, F. (2009). Expectation of life and unexpected death in open spina bifida: a 40-year complete, non-selective, longitudinal cohort study. Geraadpleegd van <http://onlinelibrary.wiley.com/doi/10.1111/j.1469-8749.2009.03543.x/epdf>
53. Peny-Dahlstrand, M., Krumlinde-Sundholm, L., & Gosman-Hedström, G. (2011, 6 oktober). Is autonomy related to the quality of performance of everyday activities in children with spina bifida? Geraadpleegd van <https://www-tandfonline-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.3109/09638288.2011.610495?needAccess=true>
54. R Brinker, M., R Rosenfeld, S., Feiwell, E., P Granger, S., C Mitchell, D., & C Rice, J. (1994, 9 september). Myelomeningocele at the Sacral Level. Geraadpleegd van http://ovidsp.tx.ovid.com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/sp-3.30.0b/ovidweb.cgi?WebLinkFrameset=1&S=OONFFPFKLFDDAMOONCEKMAIBCMGJAA00&returnUrl=ovidweb.cgi%3f%26Titles%3dS.sh.22%257c1%257c10%26FORMAT%3dtitle%26FIELDS%3dti%252cau%252clm%252cso%252chr%252cur%26S%3dOONFFPFKLFDDAMOONCEKMAIBCMGJAA00&directlink=http%3a%2f%2fovidsp.tx.ovid.com%2fovftpdfs%2fFPDDNCIBMAOOLF00%2ffs047%2fovft%2flive%2fgv024%2f00004623%2f00004623-199409000-00003.pdf&filename=Myelomeningocele+at+the+sacral+level.+Long-term+outcomes+in+adults.&navigation_links=NavLinks.S.sh.22.1&PDFIdLinkField=%2ffs047%2fovft%2flive%2fgv024%2f00004623%2f00004623-199409000-00003&link_from=S.sh.22%7c1&pdf_key=B&pdf_index=S.sh.22&D=ovft
55. Ramachandra, P., L Palazzi, K., J Skalsky, A., Marietti, S., & Chiang, G. (2013, oktober). Shunted Hydrocephalus Has a Significant Impact on Quality of Life in Children

With Spina Bifida. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S1934148213002840/1-s2.0-S1934148213002840-main.pdf?_tid=d52d1ae9-ed3d-4b5b-b408-577c2d41593f&acdnat=1531132141_70ae5395ece163969e8457e5cf8f3d49

56. Rendeli, C., Castorina, M., Ausili, E., Girardi, E., Fundaro, C., Caldarelli, M., & Salvaggio, E. (2004, 7 april). Risk factors for atherogenesis in children with spina bifida. Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs00381-004-0912-8.pdf>

57. Rofail, D., Maguire, L., Kissner, M., Colligs, A., & Abetz-Webb, L. (2013, 22 maart). A Review of the Social, Psychological, and Economic Burdens Experienced by People with Spina Bifida and Their Caregivers. Geraadpleegd van <https://link.springer.com/content/pdf/10.1007%2Fs40120-013-0007-0.pdf>

58. Rofail, D., Maguire, L., Kissner, M., Colligs, A., & Abetz-Webb, L. (2014, 30 juli). Health-related quality of life is compromised in individuals with spina bifida: results from qualitative and quantitative studies. Geraadpleegd van <https://www-sciencedirect-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/science/article/pii/S0301211514004205>

59. S Au, K., Ashley-Koch, A., & Northrup, H. (2010). Epidemiologic and Genetic Aspects of Spina Bifida and Other Neural Tube Defects. Geraadpleegd van <https://onlinelibrary-wiley-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/full/10.1002/ddrr.93>

60. S Essner, B., B Murray, C., & N Holmbeck, G. (2014, 4 mei). The Influence of Condition Parameters and Internalizing Symptoms on Social Outcomes in Youth With Spina Bifida. Geraadpleegd van https://watermark.silverchair.com/jsu036.pdf?token=AQECAHi208BE49Ooan9kkhW_Ercy7Dm3ZL_9Cf3qfKAac485ysgAAAbgwggG0BgkqhkiG9w0BBwagggGIMIIBoQIBADCCAzoGCSqGSIb3DQEHATAeBgIghkgBZQMEAS4wEQQMMk26AMf5L5gDVe9nAgEQgIIBa8gky_Vt7WO3dUvi7lQApQFydyum2FRnH0Tljeu9SDX0Qcdb762kmamsy5x8KvzKuMGp4oVI244NUtNFidWAPODWZgRoCwYjnxmG_JiZ7KwD_IHM5qazIWpoCKkVuvI6h8Law2szGlCDIXNm4dQxykqzLMNeE0iJ5uuS8WLw6JX2oC0tOzGmLyAE9TIH7EdZZMz5hkelZPV4ztnB8NZ2wVrHcqjPUPRp3H-9B7CREIx-GxnL_oW-rvWbZnwGppAJgcmqEPxyxrBA-Dgws3UbpDpZjCISgbbZaGVWOfLnmYdLSacHuL-VmuD6blk2Mw0ahrycqZpEt-

I0FdGndRdZKFH09w4oKSv13jm3l87gP_u3p0MDT0fbDBF72vxmf_eX9rtmCjYgFzcgp8X
AANXEVGj7SCCFIyVMKKbduusYo6_p4BN8KwyE6zzITEnVgXReUnll8fWce5V58oycA
SDuIjIPoPljouN0XarFQ

61. S Essner, B., & N Holmbeck, G. (2010). The Impact of Family, Peer, and School Contexts on Depressive Symptoms in Adolescents With Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://search-proquest-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/docview/821594531/fulltextPDF/F6759CEDF99D4696PQ/1?accountid=17215>

62. S Liu, J., Greiman, A., T Casey, J., Mukherjee, S., & J Kielb, S. (2016, 28 januari). A snapshot of the adult spina bifida patient – high incidence of urologic procedures. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4846714/>

63. S Schechter, M., Liu, T., Soe, M., Swanson, M., Ward, E., & Thibadeau, J. (2015, 16 januari). Sociodemographic Attributes and Spina Bifida Outcomes. Geraadpleegd van <http://pediatrics.aappublications.org.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pediatrics/135/4/e957.full.pdf>

64. Sahmat, A., Gunasekaran, R., Mohd-Zin, S., Balachandran, L., Thong, M. K., Engkasan, J., . . . M Abdul-Aziz, N. (2017, 9 november). The Prevalence and Distribution of Spina Bifida in a Single Major Referral Center in Malaysia. Geraadpleegd van <https://www.frontiersin.org/articles/10.3389/fped.2017.00237/full>

65. Scheerder, J., Theeboom, M., Willem, A., Borgers, J., & Nols, Z. (2014). Sportparticipatie in Vlaanderen anno 2014. Geraadpleegd van https://kics.sport.vlaanderen/MetenEnWeten/Gedeelde%20%20documenten/Participatiesurvey/151204_PaS14_plenair_sport.pdf

66. Schoenmakers, M., Uiterwaal, C., Gulmans, V., Gooskens, R., & Helders, P. (2004, 21 oktober). Determinants of functional independence and quality of life in children with spina bifida. Geraadpleegd van <https://search-proquest-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/docview/200735249?OpenUrlRefId=info:xri/sid:primo&accountid=17215>

67. Simms, B. (2009, 28 juli). A 3-year follow-up of the driving status of 32 young adults with spina bifida. Geraadpleegd van <https://www-tandfonline-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/doi/pdf/10.3109/03790798709166362?needAccess=true>
68. Sirzai, H., Dogu, B., Demir, S., Yilmaz, F., & Kuran, B. (2014, 24 mei). Assessment on self-care, mobility and sociaal function of children with spina bifida in Turkey. Geraadpleegd van http://www.nrronline.org/temp/NeuralRegenRes9121234-5642131_154021.pdf
69. Statistiek Vlaanderen. (2016, 25 oktober). Scholingsgraad van de bevolking (25-64j), uitgedrukt in procenten. Geraadpleegd van <http://www.statistiekvlaanderen.be/statistiek-onderwijs-en-vorming>
70. Studiedienst Vlaamse Regering (Vlaamse overheid). (2016). Vlaanderen in cijfers. Geraadpleegd van <http://www.statistiekvlaanderen.be/sites/default/files/docs/vic2017.pdf>
71. Swank, M., & S Dias, L. (1994). Walking Ability in Spina Bifida Patients: A Model for Predicting Future Ambulatory Status Based on Sitting Balance and Motor Level. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/7814582>
72. Treble-Barna, A., Juranek, J., K Stuebing, K., T Cirino, P., Dennis, M., & M Fletcher, J. (2014, 28 juli). Prospective and Episodic Memory in Relation to Hippocampal Volume in Adults With Spina Bifida Myelomeningocele. Geraadpleegd van <https://search-proquest-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/docview/1548646597/fulltextPDF/8FB192B08D8A4D55PQ/1?accountid=17215>
73. UZ Leuven. (2016, augustus). *Een kind met spina bifida in je klas* [Brochure]. Leuven: UZ Leuven
74. Van Aalderen, W. M. C., De Blécourt, A. C. E., Benninga, M., Didden, R., Elich, M., De faber, J. T. H. N., . . . He, P. J. (2010). *Ziekten en handicaps*. Houten, Nederland: Bohn Stafleu van Loghum.
75. Van Rumst, D. (2009). *Indicatiestelling voor invasieve prenatale diagnostiek. Een toetsing aan de hand van de patiënten instroom in de Vrouwenkliniek van het Universitair*

Ziekenhuis Gent. Universiteit Gent, Gent, België. Geraadpleegd van https://lib.ugent.be/fulltxt/RUG01/001/392/078/RUG01-001392078_2010_0001_AC.pdf

76. Varni, J. W., Limbers, C. A., & Burwinkle, T. M. (2007). Impaired health-related quality of life in children and adolescents with chronic conditions: a comparative analysis of 10 disease clusters and 33 disease categories/severities utilizing the PedsQL 4.0 Generic Core Scales.. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/17634123>

77. Verhoef, M., A Barf, H., A Vroege, J., W Post, M., W Van Asbeck, F., H Gooskens, R., & J Prevo, A. (2005, mei). Sex Education, Relationships, and Sexuality in Young Adults With Spina Bifida. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S0003999305000031/1-s2.0-S0003999305000031-main.pdf?_tid=22d77a41-5d0d-4415-bf9c-7e5fb43f834d&acdnat=1529694755_ed7f57cc921c06d638bec6787806e7b2

78. W Dowrick, P., & Dove, C. (1980). The Use of Self-modeling to Improve the Swimming Performance of Spina Bifida Children. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC1308105/pdf/jaba00047-0053.pdf>

79. W Roach MD, J., F Short RN, B., & M Saltzman, H. (2010, 28 september). Adult Consequences of Spina Bifida. Geraadpleegd van <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3069297/>

80. Wagner, R., Linroth, R., Gangl, C., Mitchell, N., Hall, M., Cady, R., & Christenson, M. (2015). Perception of secondary conditions in adults with spina bifida and impact on daily life. Geraadpleegd van https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S1936657415000485/1-s2.0-S1936657415000485-main.pdf?_tid=f472ef15-5a35-407e-895b-d560c46a580a&acdnat=1529920019_f0f534035f4b01f35629afff0599c6ca

81. Wald, N. J., Brock, D. J. H., & Bonnar, J. (1974). Prenatal Diagnosis of Spina Bifida and Anencephaly by Maternal Serum-Alpha-Fetoprotein Measurement A Controlled Study. Geraadpleegd van <https://ac-els-cdn-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/S0140673674928384/1-s2.0-S0140673674928384->

main.pdf?_tid=e178d0ae-a04c-11e7-b517-
00000aab0f02&acdnat=1506163952_1d931516d805e6a602582a9fa01e2309

82. Wang, J. C., Lai, C. J., Wong, T. T., Liang, M. L., Chen, H. H., Chan, R. C., & Yang, T. F. (2013, 15 april). Health-related quality of life in children and adolescents with spinal dysraphism: results from a Taiwanese sample. Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs00381-013-2117-5.pdf>

83. Y Tsai, P., F Yang, T., C Chan, R., H Huang, P., & T Wong, T. (2002, 22 januari). Functional investigation in children with spina bifida-measured by the Pediatric Evaluation of Disability Inventory (PEDI). Geraadpleegd van <https://link-springer-com.kuleuven.ezproxy.kuleuven.be/content/pdf/10.1007%2Fs00381-001-0531-6.pdf>