

# Eat. treat. repeat

Citation for published version (APA):

Dumont, E. L. M. (2024). *Eat. treat. repeat: Tailored cognitive behavioral therapy for avoidant/restrictive food intake disorder (ARFID) in children and adolescents*. [Doctoral Thesis, Maastricht University]. Maastricht University. <https://doi.org/10.26481/dis.20241114ed>

## Document status and date:

Published: 01/01/2024

## DOI:

[10.26481/dis.20241114ed](https://doi.org/10.26481/dis.20241114ed)

## Document Version:

Publisher's PDF, also known as Version of record

## Please check the document version of this publication:

- A submitted manuscript is the version of the article upon submission and before peer-review. There can be important differences between the submitted version and the official published version of record. People interested in the research are advised to contact the author for the final version of the publication, or visit the DOI to the publisher's website.
- The final author version and the galley proof are versions of the publication after peer review.
- The final published version features the final layout of the paper including the volume, issue and page numbers.

[Link to publication](#)

## General rights

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal.

If the publication is distributed under the terms of Article 25fa of the Dutch Copyright Act, indicated by the "Taverne" license above, please follow below link for the End User Agreement:

[www.umlib.nl/taverne-license](http://www.umlib.nl/taverne-license)

## Take down policy

If you believe that this document breaches copyright please contact us at:

[repository@maastrichtuniversity.nl](mailto:repository@maastrichtuniversity.nl)

providing details and we will investigate your claim.

## Thesis summary(short)

*Titel:*

**Eat. Treat. Repeat.** Cognitive Behavioral Therapy for Avoidant/ Restrictive Food Intake Disorder(ARFID) in Children and Adolescents

**Eat. Treat. Repeat**, is a doctoral thesis that describes the results of research into tailored Cognitive Behavioral Therapy (CBT) for Avoidant Restrictive Food Intake Disorder (ARFID) in children and adolescents. This concerns a heterogeneous patient group, with different etiological profiles, in a broad age range, that – often – suffers from comorbid problems. This may require that CBT interventions are adapted to these respective factors, which should be investigated regarding effectiveness and feasibility. The designed methods and protocols investigated in children and adolescents in this thesis show that CBT is an effective approach to reduce disordered eating behavior and to tackle ARFID. A CBT approach called SLIK was researched in children with and without a syndromic burden, and the use of Movement Desensitization and Reprocessing (EMDR) was researched in a monotherapy condition as well as combined with SLIK. A new designed CBT procedure, based on inhibitory exposure was researched in Adolescents.

*Titel:*

**Eet. Behand. Herhaal.** Cognitieve gedragstherapie voor vermijdende/restrictieve voedselinnamestoornis (ARFID) bij kinderen en adolescenten

## These samenvatting (kort)

**Eet. Behand. Herhaal**, is een proefschrift dat de resultaten beschrijft van onderzoek naar Cognitieve Gedragstherapie (CGT) op maat gemaakt voor vermijdende/restrictieve voedselinnamestoornis (ARFID) bij kinderen en adolescenten. Het betreft een heterogene patiëntengroep, met verschillende etiologische profielen, in een groot leeftijdsbereik, die vaak kampt met comorbide problematiek. Dit kan vereisen dat CGT-interventies worden aangepast aan deze respectievelijke factoren en worden onderzocht op effectiviteit en haalbaarheid. De ontworpen methoden en protocollen die in dit proefschrift zijn onderzocht bij kinderen en adolescenten laten zien dat CGT een effectieve aanpak is om verstoord eetgedrag te verminderen en ARFID aan te pakken. Een CGT-benadering genaamd SLIK werd onderzocht bij kinderen met en zonder een syndromale aandoening en het gebruik van Eye Movement Desensitization and Reprocessing (EMDR) werd onderzocht in een monotherapieconditie en gecombineerd met SLIK. Een nieuw ontworpen CGT-procedure, gebaseerd op inhibitoire exposure, werd onderzocht bij adolescenten.

## Thesis summary (extended)

*Titel:*

**Eat. Treat. Repeat.** Cognitive Behavioral Therapy for Avoidant/ Restrictive Food Intake Disorder (ARFID) in Children and Adolescents

Disordered eating in children and adolescents can manifest in several representations. In one of these, there is an avoidant and/or restrictive food intake, which can result in (future) physical problems and/or psychosocial distress. Since 2013, Avoidant/Restrictive Food Intake Disorder (ARFID), has been included in the eating disorders chapter of the Diagnostic and Statistical Manual of mental disorders, fifth edition (DSM-5; American Psychiatric Association, 2013). This led to international consensus regarding the diagnosis of ARFID by means of criteria and representations, described in etiology-based profiles. In addition, the demarcation with other types of (restrictive) eating disorders was done by formulating clear inclusion and exclusion criteria.

Despite the improvement in recognizing ARFID since 2013, there is still limited understanding and evidence on how to treat this disorder and about its prognosis for recovery. Because there is no age limit for diagnosing ARFID, it concerns a very heterogeneous population, implying tailored treatments. Not only age, but also the presence of comorbid physical, psychological and developmental problems suggests that there is no all-purpose treatment for all these different types of individuals with ARFID. In this dissertation, an attempt was made to investigate the effectiveness of tailored treatment options for children and adolescents, with and without additional comorbidity, using cognitive behavioral therapy (CBT).

First of all, it was investigated whether refraining from (intensive) (C)BT in (young) children with ARFID lead to a worse prognosis at a later age. That is, would it be better to do the treatment when this is indicated, or may they just wait and see? In other words, it was not known which (young) children (with or without comorbid problems), were at risk of remaining in their disordered eating or who may be subject to spontaneous recovery. In the first study, we investigated (N=236) which children - who refrained from CBT in the past – did not recover at a later age. Findings showed that 63% of these children had not developed an age-appropriate eating pattern and still met the ARFID criteria after an average of 6 years and 3 months after first consultation. Besides the advice to seek help at an early age, children with an autism spectrum disorder, children with selective eating patterns and especially boys were at greater risk for not improving.

In a second study with (N=252) children who had followed (C)BT we found that 72% of the sample had benefitted from this treatment, after – on average - 4 years and 7 months after first consultation and treatment. That is, they had an age-appropriate eating pattern and their ARFID was in remission. In the remaining 28% there was an average improvement, but they still met one or more ARFID criteria. Children at greater risk of not (fully) improving towards an age-appropriate food intake were - again - boys, children with an intellectual disability, or with a selective eating pattern.

In ARFID, there can be multiple representations, the so-called etiologically based profiles. For example, there can be avoidance by a lack of interest in food, which may be due to a disturbed

hunger anticipation, a disgust towards larger amounts, or by feeling full too quickly. Food can also be avoided because of a difficulty with certain textures or other properties of food such as the smell, color or texture. The third profile includes children who refuse (certain) foods due to concerns about its aversive consequences, for example choking, vomiting, abdominal discomfort or an allergic reaction. This may be caused by previous negative food experiences, which can even be experienced as traumatic. In the third study in this thesis, it was investigated by means of a case series (N=6) whether trauma treatment such as Eye Movement Desensitization and Reprocessing (EMDR) may be appropriate in children who may recognize themselves in this third profile, and who had a feeding history with traumatic events. In addition, we investigated whether feeding difficulties decreased when EMDR was given as a “mono” therapy (N=3) and when it was combined with a cognitive behavioral therapy program such as the SLIK program (N=3). We found a significant positive change in eating problems in almost all children, and in 4 of the 6 children also a decrease in posttraumatic stress symptoms. In children who followed the combined intervention there was a greater increase in food intake in terms of accepted amounts and variety. The expectation that adding EMDR to SLIK could possibly lead to an acceleration of SLIK treatment did not come true.

The fourth study focused on children with a genetic disorder, the so-called Noonan Syndrome-like RASopathy, in which a high prevalence of serious eating problems (50-75%), such as ARFID is observed. In addition to the consequences of their serious eating problems (such as a high grade of tube-feeding-dependency and a low body mass index), these children experience many physical and developmental problems and some even develop a high energy expenditure. We investigated whether these children benefitted from an intensive behavioral treatment such as SLIK, just as much as children with ARFID without such a comorbid syndrome. In doing so, we compared the files and treatment results of 2 groups: (1) children with a Noonan Syndrome-like RASopathy and ARFID (N=12) and (2) children without this genetic disorder and ARFID (N=24). It appeared that ARFID was in remission (and that children showed an age-appropriate food intake) in 67% of the Noonan Syndrome-like RASopathy group. In the matched children with ARFID without this syndrome, this was the case in 79% of the sample. Statistically, however, this was not a significant difference. Feeding/eating skills difficulties (such as vomiting, gagging, chewing and swallowing problems, oral hypersensitivity, tube and/or medical nutrition dependency) also decreased significantly in both groups, but there was no significant difference between the two groups. Weight/length SDS increased in both groups, but - again - there was no significant difference between both groups. The conclusion was that the SLIK-program is an appropriate and effective treatment for serious feeding problems (such as ARFID) in children with a Noonan Syndrome-like RASopathy.

The four previous studies show that the results of the SLIK-program are effective in (young) children and that having comorbid problems is not an exclusion criterium for treatment. The SLIK-program is a stepwise behavioral therapy program developed in the Netherlands (SeysCentra) based on gradual exposure and additional behavior-modifying principles such as extinction, positive reinforcement, relaxation and counterconditioning. The exposure performed is based on the habitual learning model, in which an attempt is made to extinguish the physical fear sensation by gradual exposure to the conditioned stimulus (food) by not allowing the conditioned reaction to follow the conditioned (emotional) response.

In the last study, the effectiveness of a newly developed CBT program for adolescents with ARFID, based on a different underlying learning model than the SLIK program, was investigated. Here, exposures were conducted based on the inhibitory learning model, in which expectancy violation is the starting point for the reduction of fear. In a case series among 11 adolescents, a newly developed program was assessed regarding the violation of expectancies and fear reduction during the exposures, and what that meant for food intake, and other physical and psychological measures such as weight/length SDS, ARFID criteria, and food neo-phobic complaints. High effect sizes were observed both in the violation of expectancies, and in fear reduction. In 10 of the 11 children, ARFID was in remission after 4 weeks of treatment and an average increase in weight SDS was seen as well as a decrease in food neophobic complaints. The different ARFID profiles in the adolescents appeared to have no influence on the treatment effect. This proof-of-concept study shows promising effects of CBT in the form of inhibitory based exposure in the treatment of ARFID in adolescents.

The main conclusion from these studies is that treatment for ARFID, especially when there are identified risk factors, is effective but is also necessary. Refraining from CBT treatment gives a great chance of long-term sustainability with possible physical and psychological consequences. Despite the great heterogeneity, even among (young) children and adolescents, CBT has proven to be an effective treatment method, and the tailor-made interventions and programs for the specific age groups are promising.

Despite this, more research is needed into effective treatment interventions. The focus of research should be on reducing the intensity of treatment, the transformation of CBT programs to (young) adults, and more research into the application and effect of EMDR in trauma-related ARFID such as in children, adolescents and adults who fall under the profile "fear of aversive consequences". What is not a topic within this thesis but does have an influence on the tailoring of CBT treatment interventions for ARFID, is the further research, validation and design of good diagnostic instruments for ARFID in different target groups such as for specific age groups e.g. (young) children, adolescents and adults with burdensome comorbidity such as autism spectrum disorder an intellectual disability and/or with a syndromic condition.

*Titel:*

**Eet. Behandel. Herhaal.** Cognitieve gedragstherapie voor vermijdende/restrictieve voedselinnamestoornis (ARFID) bij kinderen en adolescenten

### **These samenvatting (uitgebreide versie)**

Eetstoornissen bij kinderen en jongeren kennen meerdere vormen. Een van deze is de stoornis waarbij er sprake is van een vermijdende en/of restrictieve voedselinname, samenhangend met ernstige lichamelijke en/of psychische gevolgen. Sinds 2013 is ARFID, dat staat voor Avoidant/Restrictive Food Intake Disorder, opgenomen in het psychiatrische handboek, de DSM-5 (American Psychiatric Association) en bestaat er met criteria en profielen internationaal consensus over het vaststellen van deze voedings-/eetstoornis. Daarbij heeft de afbakening met andere types (restrictieve) eetstoornissen plaatsgevonden door het formuleren van heldere in- en exclusiecriteria. Ondanks de verbetering die dit heeft opgeleverd in het herkennen van deze eetstoornis, is nog maar weinig bekend over hoe deze stoornis kan worden behandeld en over de prognose voor het herstel. Doordat er bij ARFID geen leeftijds grens is voor diagnose, betreft het een zeer heterogene groep mensen, hetgeen impliceert dat behandeling op maat gemaakt moet worden. Niet alleen leeftijd, maar ook de aanwezigheid van comorbide lichamelijke, psychische en ontwikkelingsproblemen suggereren dat er geen vergelijkbare, kant en klare behandeling is voor al deze soorten mensen met ARFID. In deze dissertatie is getracht om voor kinderen en jongeren, met en zonder comorbiditeit, behandelingsmogelijkheden gestoeld op cognitieve gedragstherapie (CGT) te onderzoeken.

Allereerst is onderzocht of het afzien van (intensieve) (C)BT bij (jonge) kinderen met ARFID leidt tot een slechtere prognose op latere leeftijd. Met andere woorden, is het beter om de behandeling te doen wanneer deze geïndiceerd is, of kunnen ze beter afwachten? Met andere woorden, het was niet bekend welke (jonge) kinderen (met of zonder comorbide problemen) het risico liepen om niet te herstellen van hun eetstoornis of bij wie spontaan herstel zou kunnen optreden. In de eerste studie onderzochten we (N=236) welke kinderen - die in het verleden afzagen van CGT - op latere leeftijd niet herstelden. Uit de bevindingen bleek dat 63% van deze kinderen geen leeftijdsadequaat eetpatroon had ontwikkeld en na gemiddeld 6 jaar en 3 maanden na het eerste intake consult nog steeds voldeden aan de ARFID-criteria. Naast het advies om al op jonge leeftijd hulp te zoeken, liepen kinderen met een autismespectrumstoornis, kinderen met selectieve eetpatronen en vooral jongens een groter risico om niet te verbeteren.

Daarnaast toonde een tweede studie aan, dat bij kinderen met ARFID die wel gebruik hadden gemaakt van een cognitief-gedragstherapeutische behandeling in 72 % van deze groep (N=252), na 4 jaar en 7 maanden sprake was van een leeftijdsadequaat eetpatroon en dat de ARFID in remissie was. Bij de overige 28% was er gemiddeld genomen wel een verbetering te zien, maar voldeden zij wel nog aan een of meerdere criteria van ARFID. Kinderen die meer risico liepen om niet (volledig) te verbeteren tot een leeftijd adequate voedselinname waren

ook hier weer jongens, kinderen met een verstandelijke beperking of met selectieve eetpatronen.

Bij ARFID kan sprake zijn van meerdere representaties, de zogenaamde profielen, die etiologisch gebaseerd zijn. Zo kan er sprake zijn van vermijding vanwege een gebrek aan interesse in eten of voeding, door een verstoorde hongeranticipatie of walging jegens grotere hoeveelheden, of door het (te) snel ervaren van een gevoel van verzadiging. Ook kan voeding vermeden worden doordat men moeite heeft met bepaalde texturen of andere eigenschappen van voeding zoals de geur, kleur of textuur. De laatste groep betreft kinderen die (bepaalde) voeding weigert vanwege zorgen over de aversieve gevolgen.

In de derde studie is in de vorm van een case series onderzocht of een traumabehandeling zoals Eye Movement Desensitisation and Reprocessing (EMDR) passend is om te geven aan kinderen die zich herkennen in dit derde profiel, en waarbij er sprake is van eerder opgedane traumatische gebeurtenissen in relatie tot voeding. Daarbij is onderzocht of voedingsproblemen afnemen wanneer deze EMDR gegeven werd als “mono” therapie en wanneer deze gecombineerd werd met een cognitief-gedragstherapeutisch programma zoals het SLIK programma. We vonden een significante afname van eetproblemen bij nagenoeg alle kinderen, en bij 4 van de 6 kinderen ook een afname van posttraumatische stresssymptomen. Bij kinderen met de gecombineerde interventie was er een grotere toename in voedingsinname wat betreft geaccepteerde hoeveelheden en variatie. De hypothese dat de toevoeging van EMDR aan SLIK mogelijk tot een versnelling van de SLIK- behandeling zou leiden, kon niet worden bevestigd.

De vierde studie richtte zich op kinderen met een genetische stoornis, de zogenaamde Noonan Syndrome-like RASopathy, waarbij een hoge prevalentie van ernstige eetproblemen (50-75%), zoals ARFID, wordt gezien. Deze kinderen ervaren naast de gevolgen van hun ernstige eetproblemen (zoals een hoge sondevoeding-afhankelijkheid) veel lichamelijke en ontwikkelingsproblemen. We onderzochten of deze kinderen ook gebaat zijn bij een intensieve gedragsbehandeling als SLIK. Daarbij vergeleken we twee groepen: (1) kinderen met een Noonan Syndrome-like RASopathy en ARFID (N=12) en (2) kinderen zonder deze genetische stoornis en ARFID (N=24). We zagen bij beide groepen een substantiële verbetering na behandeling met het SLIK-programma, waarbij bij 67% van de Noonan Syndrome-like RASopathy groep de ARFID na behandeling in remissie was en er ook sprake was van een leeftijd adequate voedselinname. Bij de kinderen met ARFID zonder dit syndroom was dat het geval bij 79%. Dit verschil was echter niet significant. Ook problemen met eetvaardigheden (zoals braken, kokhalzen, kauw- en slikproblemen, afhankelijkheid van sonde- en/of medische voeding) verminderde aanzienlijk bij beide groepen, doch tussen beide groepen was er geen significant verschil. Ook gewicht/lenkte SDS nam toe gedurende behandeling bij beide groepen, zonder verschil tussen beide groepen. Conclusie was dat CGT middels het SLIK-programma passend en effectief is in de behandeling van ernstige voedingsproblemen (ARFID) bij kinderen met een Noonan Syndrome-like RASopathy, en dat dit even effectief is als bij kinderen met ARFID zonder dit syndroom.

Uit de vier voorafgaande studies blijkt dat de resultaten van het SLIK-programma effectief zijn bij (jonge) kinderen en dat het hebben van comorbide problemen geen contra-indicatie voor behandeling is. Het SLIK-programma is een in Nederland (binnen SeysCentra)

ontwikkeld stappenplan gebaseerd op graduele exposure en toegevoegde gedrag modificerende principes zoals extinctie, positieve bekrachtiging, relaxatie en contra conditionering. De uitgevoerde exposure is gebaseerd op het habitueel leermodel, waarbij geprobeerd wordt de fysieke angstsensatie uit te doven door geleidelijke blootstelling aan de geconditioneerde stimulus (voedsel) door de geconditioneerde reactie niet te laten volgen op de geconditioneerde (emotionele) respons.

In de laatste studie is de effectiviteit onderzocht van een nieuw ontwikkeld CGT-programma voor adolescenten met ARFID, gebaseerd op een ander leerprincipe dan het SLIK-programma. Hierbij werd gebruik gemaakt van exposure op basis van het inhibitorisch leermodel, waarbij verwachtingsdisconfirmatie het uitgangspunt is voor de afname van angst. In een case series met 11 kinderen werd een programma getoetst met betrekking tot het schenden van verwachtingen en angstreductie gedurende de exposure, en wat dat betekende voor de voedselinname, en andere lichamelijke en psychologische maten zoals gewicht/lengete SDS, ARFID-criteria, en voedsel neofobische klachten. Er waren hoge effectgroottes voor het schenden van verwachtingen, en vergelijkbare effectgroottes voor angstaffname. Bij 10 van de 11 kinderen was na 4 weken behandeling de ARFID in remissie en werd een gemiddelde toename in gewicht SDS gezien, alsook afname in voedsel neofobische klachten. De verschillende ARFID-profielen bij de adolescenten bleken geen invloed te hebben op het behandelresultaat. Deze *proof of concept* studie laat veelbelovende effecten van CGT in de vorm van inhibitorische exposure zien bij de behandeling van ARFID bij adolescenten.

De voornaamste conclusie uit deze studies is dat behandeling bij ARFID, zeker wanneer er sprake is van gevonden risico factoren (zoals bijvoorbeeld bij belastende comorbiditeit), effectief is voor herstel, maar ook nodig is. Afzien van CGT-behandeling geeft een grote kans op bestendiging van de eetproblemen op langere termijn met mogelijk lichamelijke en/of psychologische gevolgen. Ondanks de grote heterogeniteit, zelfs onder (jonge) kinderen en jongeren, is CGT een effectieve behandelmethode gebleken, en zijn de op maat gemaakte interventies en programma's voor de specifieke leeftijdsgroepen veelbelovend. Desondanks is er meer onderzoek nodig naar effectieve behandelinterventies. Speerpunt van onderzoek zou het verminderen van de behandelintensiteit kunnen zijn, de transformatie van CGT-programma's naar (jong) volwassenen, en er zou meer onderzoek naar de toepassing en werking van EMDR bij trauma gerelateerde eetproblemen gedaan kunnen worden, zoals bij kinderen, jongeren en volwassenen die zich herkennen in het profiel 'zorgen over de aversieve gevolgen'. Voorts, ofschoon geen onderwerp binnen deze these, is het van belang om verder psychometrisch onderzoek te doen naar goede, valide diagnostische instrumenten voor ARFID bij verschillende doelgroepen zoals leeftijdsgroepen en personen met belastende comorbiditeit zoals autismespectrumstoornis, een verstandelijke beperking en/of een syndromale aandoening.



